

## 혀에 발생한 골종 1예

CHA의과학대학교 분당차병원 이비인후과학교실,<sup>1</sup> 병리학교실<sup>2</sup>

김홍중<sup>1</sup> · 홍종의<sup>1</sup> · 허진형<sup>2</sup> · 유찬기<sup>1</sup>

### A Case of Osteoma of the Tongue

Hong Joong Kim, MD<sup>1</sup>, Jong Eui Hong, MD<sup>1</sup>, Jin Hyung Heo, MD<sup>2</sup> and Chan-Kee Yoo, MD<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Otolaryngology-Head & Neck Surgery; <sup>2</sup>Pathology, College of Medicine, Pochon CHA University, Seongnam, Korea

#### —ABSTRACT—

An osteoma is a benign bone tumor that commonly is seen in the mandible or maxilla in the head and neck region, but is rare in the soft tissue in the head and neck, such as tongue. Recently we experienced a case of tongue osteoma. A 16-year-old woman presented with about 11cm sized, nodular, firm mass. The mass was observed on the left side of the dorsum of the tongue. According to the medical record, when she was undergone tonsillectomy and adenoidectomy 7 years ago, there was the mass at the same site of the tongue at that time. It appears that the mass was enlarged slowly over the past 7 years. Surgical excision was done after physical exam and magnetic resonance image. Histologically, the lesion was compact bone with osteocytes and haversian system and the bone was surrounded by fibrous connective tissue and stratified squamous epithelium. So the lesion was diagnosed as 'osteoma of the tongue'. (J Clinical Otolaryngol 2009;20:110-114)

KEY WORDS : Osteoma · Tongue.

#### 서론

두경부에서 혀를 포함한 연부 조직에 발생하는 양성병변으로는 섬유종, 유두종과 같은 비골성 양성 질환(nonosseous benign lesion)이 대부분을 차지하며 골종(osteoma), 연골종(chondroma) 및 골연골종(osteochondroma)과 같은 골성 질환은 발생 빈도가 매우 낮다.<sup>1)</sup> 이러한 두경부에서의 골종, 연골종 및 골연골종은 상악골이나 하악골에서 주로 발견되며 골조직이 천천히 자라는

형태를 지닌다.<sup>2)</sup> 두경부 연부조직의 골성 질환은 드문 편이나 주로 혀에서 발생하고 혀의 골종은 Monesserat가 1913년 처음으로 보고한 이래<sup>3)</sup> 50여 증례가 보고되었고 국내에서는 혀의 골종 3예와 연골종 1예가 보고되었다.<sup>4-6)</sup> 최근 저자들은 16세 여자 환자의 혀에 발생한 골종 1예를 경험하였다. 상기 환자는 7년전 본원에서 편도 및 아데노이드 절제술을 시행받았고, 그 당시에도 혀의 종물이 관찰이 되었으나 이에 대하여 다른 처치 없이 지내다가 점차 크기가 증가하는 양상이 있어 본원 내원하여 이학적 검사 및 구인두 자기공명검사를 시행 후 제거하였기에 이에 대한 고찰을 보고하고자 한다.

#### 증례

16세 여자 환자가 8년 전 우연히 혀에 발생한 무통성

논문접수일 : 2008년 10월 28일  
논문수정일 : 2008년 11월 27일  
심사완료일 : 2009년 1월 5일  
교신저자 : 유찬기, 463-712 경기도 성남시 분당구 아탑동 351 CHA의과학대학교 분당차병원 이비인후과학교실  
전화 : (031) 780-5340 · 전송 : (031) 780-5347  
E-mail : yoochankee@empal.com

의 경성 종물을 주소로 내원하였다. 상기 환자 과거력상 2001년 8월 본원에서 편도 및 아데노이드 절제술 시행 받았고, 그 당시에도 혀의 종물은 관찰된 기록이 있으나 그 크기와 성상에 대하여는 자세한 언급이 없어 알 수 없었다. 보호자 진술에 의하면 혀의 종물은 크기가 서서히 증가하는 양상이었고, 최근 종물과 관련하여 주로 구강 내 이물감을 호소하였고, 특별한 치료는 받지 않았다고 한다. 외상을 비롯한 과거력 및 가족력상 특이 소견은

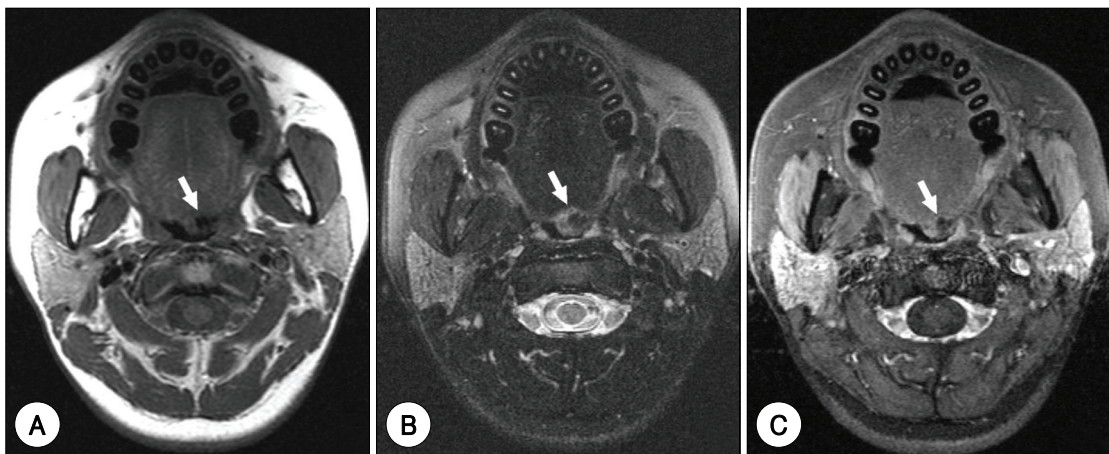


**Fig. 1.** Preoperative intraoral finding. About 11 cm sized, nodular, and firm mass was observed. The mass located at the base of the tongue just left of the midline, the site of exact circumvallate papilla.

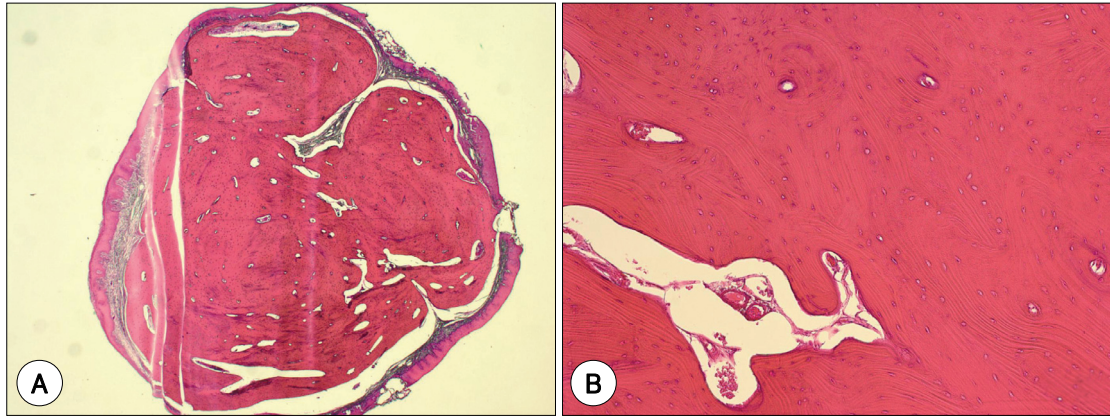
없었고, 종물 이외의 다른 신체적 증상은 호소하지 않았다. 이학적 검사상 혀의 유곽유두(circumvallate papilla) 뒤쪽 중앙에서 약간 좌측으로 약 11 cm 크기의 주위 조직과 잘 구분되어지는 유경성(pedunculated)의 무통성 구형 종물이 관찰되었다(Fig. 1). 그외 구강, 비강 및 인후두에는 대한 특별한 이상 소견은 관찰되지 않았다. 종물의 성상 및 주위 연조직과의 관계를 정확하게 확인하기 위하여 구인두 자기공명영상을 촬영하였다(Fig. 2). 구인두 자기공명영상 소견상 T1 강조 영상 및 T2 강조 영상에서 모두 저 신호를 보였으며 특별히 조영 강조되는 영상은 보이지 않았다. 부분 마취 하에서 종물의 완전 절제술을 시행하였으며 종물은 0.8×0.7 cm 크기의 팝콘 모양이었다. 수술 후 시행한 병리조직학적 소견은 광학 현미경에서 섬유성 결합조직 및 중층편평상피세포에 의해 둘러싸여 있는 치밀골 소견을 나타내었고, 정상적인 하버시안 계통(Haversian system)을 갖는 성숙한 층판뼈(matured lamellated bone) 및 골세포가 관찰되어 골종으로 진단하였다(Fig. 3). 수술 3개월 후 환자는 수술 부위 특별한 문제없으며 재발의 소견은 관찰되지 않았고(Fig. 4) 현재 외래에서 경과관찰 중이다.

## 고 찰

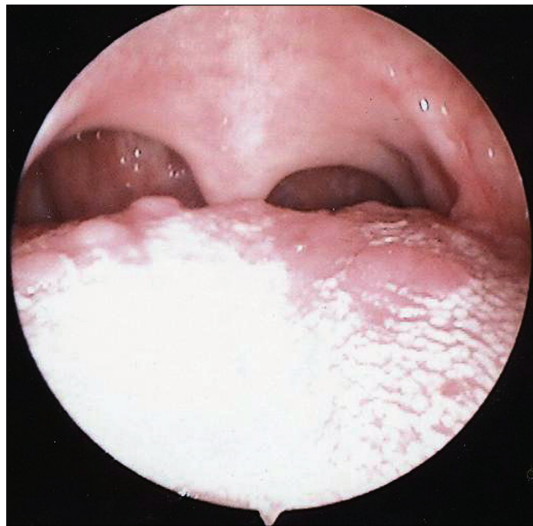
혀에 생기는 골조직과 관련된 질환은 골종, 연골종 및



**Fig. 2.** Oropharynx MRI finding. About 6 mm sized Lt. paramedian superficial nodule on the tongue base (white arrow), signal void in T1 weighted image and T2 low signal and no definite contrast enhancement. A : T1WI. B : T2WI. C : T1WI with contrast.



**Fig. 3.** A : Central mass of mature bone surrounded by fibrous connective tissue and covered with stratified squamous epithelium (H & E  $\times 12$ ), B : High magnification view reveals osteocytes and the matured lamellated bone with haversian system (H & E, 100).



**Fig. 4.** Postoperative intraoral finding. The wound healed quite well and there was no finding of relapse.

골연골종으로 나눌 수 있다. 그 중에서 골종은 정상적인 하버시안 계통 및 열공(lacunae) 내 골모세포(osteoblast)와 파골세포(osteoclast)과 관찰되는 성숙한 정상 골조직으로 구성되어 있는 양성 종양으로 주로 장골(long bone)에 주로 나타나며 두경부 영역에서는 상악골 및 하악골에서 주로 발생하는 것으로 알려져 있다.<sup>7)</sup> 두개골에 발생하는 골종은 두경부에 발생하는 양성 종양 중 흔한 것으로 알려져 있으나 연부 조직에서의 발생은 매우 드물다.<sup>7)</sup>

혀에서 발생하는 골종은 문헌 고찰상 영아기와 소아기에서도 증상이 발생한 예도 있었지만 처음 진단된 연령은 8세에서 73세로 다양하나 주로 20~30대에서 진단되는 것으로 되어 있다.<sup>8)</sup> 그리고 75% 정도에서는 여성에서 발생하는 것으로 알려져 있다.<sup>9)</sup> Wesly와 Zielinski가 보고한 혀의 복부(ventral surface)에 발생한 1례를 제외하고 혀의 배부(dorsal surface)에 발생하였으며,<sup>10)</sup> 주로 유곽유두와 설맹공(foramen caecum), 혀의 전방 2/3와 후방 1/3이 만나는 부위인 분계고랑(sulcus terminalis) 등에서 호발한다. 임상적으로 주위 조직과 경계가 명확히 구분되는 구형의 무통성 경성 종물 형태로 나타나며 대부분 유경성이다. 대부분 단발성으로 골종이 발생하나 Markaki 등은 동일인에게서 2개의 혀의 골종이 발생한 경우도 있다고 보고하였다.<sup>11)</sup> 혀의 골종은 크기가 Maqbool 등이 보고한 우측 후두개곡에 4×5 cm 크기의 골종을 제외하고 나머지는 0.5~2 cm 크기였다.<sup>12)</sup> 환자가 주로 호소하는 증상으로 무증상인 경우가 40%이고, 25%에서는 이물감을 호소하고 그외 연하곤란, 구토, 오심, 인후자극, 질식 등을 호소하였다는 보고가 있고<sup>13)</sup> 치과진료 중 우연히 발견되는 예도 있었다.<sup>11)</sup>

혀의 골종은 임상적으로 단단한 종물이며 대부분 유경성 혹은 무경성(sessile)의 형태로 존재한다고 되어 있다.<sup>5)</sup> 방사선학적으로 혀의 골종은 성숙한 정상 골조직을 가지므로 컴퓨터 단층 촬영 소견상 고밀도의 영상을 보이고, 자기공명영상 소견상 T1 강조 영상 및 T2 강조

영상 및 조영제를 사용한 영상 모두에서 무신호(signal void) 소견을 나타낸다고 되어 있다.<sup>14)</sup> 본 증례에서는 구인두 자기공명영상을 촬영하였는데 이것은 경성 종물이었으나 이학적 검사상 연부 조직에서 기원한 종물로 생각하였고, 주위 연부 조직과의 관계를 확인하기 위함이었다. 구인두 자기공명영상 소견상 T1 강조 영상, T2 강조 영상, 그리고 조영 증강 영상에서 모두 무신호를 보였고 이는 골종의 자기공명영상 소견과 일치하였다.

혀의 골종의 발생 기전은 아직 명확히 밝혀져 있지는 않으나 몇 가지 가설이 있다. 첫번째 발생 기전으로는 외상후 골화성 근염(post-traumatic myositis ossificans)과 비슷한 양상으로 이전의 손상, 혈종, 만성 염종의 결과로 골성화생이 발생했다는 것이다.<sup>15)</sup> 그러나 만성 염증, 잔여 연골 등은 외상후 골화성 근염에서는 발견되나 혀의 골종에서는 발견되지 않는다는 한계가 있으며 본 증례에서는 혀의 별다른 외상의 과거력이 없는 것으로 미루어 보아 가능성이 낮을 것으로 사료된다. 그 다음으로 가능한 발생 기전으로는 골종이 주로 갑상선이 발생하여 경부로 하강하는 부위에서 발생했다는 해부학적 근거를 바탕으로 정상적으로 하강하지 못한 설내 갑상선 조직의 잔유물에서 기원했다는 것이 있다.<sup>11)</sup> 그러나 이 가설 역시 연부조직인 갑상선에서 정상 골조직으로 분화하는 것은 매우 드물기 때문에 가능성이 낮다. 세 번째 혀의 골종이 발생하는 기전으로 발생학적으로 두 번째 새궁(pharyngeal arch)의 잔유물에 의하여 형성되었다고 보는 것이다.<sup>11)</sup> 이 기전은 혀의 골종이 주로 발생하는 부위가 설맹공이라는데 근거하였다. 설맹공은 혀의 발달과정에서 두 번째 새궁이 퇴화하면서 만들어지는 첫 번째 새궁과 세 번째 새궁이 만나는 접합부위가 된다. 이때 골종이 선천적으로 두 번째 새궁의 잔유물에서 발생하였다고 가정하였고, 첫 번째 혹은 세 번째 잔유 새궁에서도 가능하다고 하였다.<sup>11)</sup> 네 번째 기전으로 원시 중간엽 조직(primitive mesenchymal tissues)은 다분화성(multipotentiality)을 가지고 있는데 이 조직의 일부 세포가 비특이적인 곳에서 분화하여 혀의 골종을 형성했다는 것이 있다.<sup>11)</sup> 세 번째와 네 번째 발생기전이 혀의 골종의 발생에 가능성이 높으나 더 정확한 기전은 추후 연구에 의해서 밝혀져야 하겠다.

본 증례는 국내에서 보고된 다른 증례와 달리 이미 혀

의 종물에 대하여 7년 전에 이미 의료진에 의해서 혀의 종물이 관찰되었음에도 특별한 처치 없이 지내오다가 이번에 수술적 치료를 한 경우이다. 2001년 8월 편도 및 아데노이드 절제술 시행받았을 당시의 입원 기록을 확인해 보면 좌측 유곽유두 부위에 결절이 있는 것으로 기록되어 있으나 그 크기, 성상에 대하여는 언급이 없어 본 증례에서 수술 받기 전의 상태와의 비교는 할 수 없으나 환자 및 보호자의 진술에 의하면 서서히 크기가 증가한 것 이외에는 다른 사항은 없다고 하였다. Vered 등의 보고에 의하면 후향적으로 분석한 40예 중에서 10%(4예)에서 발견 이후 8년이 넘어서 치료를 받았다고 되어 있고, 그 크기는 본 증례와 비슷하게 1.5 cm에서 2.0 cm 정도였으나 치료가 시작되기까지 진료를 받았는지에 대한 언급은 없었다.<sup>8)</sup>

혀에 생긴 종물로 환자가 내원하였을 때 육안적 크기, 성상 등이 서로 비슷하여 정확한 감별이 필요하며 혀의 골종과 감별해야 할 질환으로 섬유종, 유두종, 연골종, 골연골종, 설갑상선, 소타액선 종양 등이 있고,<sup>16)</sup> 그 치료로는 외과적 완전 절제이고 앞선 연구에서 재발의 사례가 없는 것으로 보아 재발은 드물고 좋은 예후를 갖는 것으로 사료된다.

**중심 단어 :** 혀 · 골종.

## REFERENCES

- 1) Baek SH, Lee YH, Lee BD, Chang HS. A case of osteochondroma of the Tongue. *Korean J Otolaryngol* 1999;42 (12): 1598-600.
- 2) Lutcavage GJ, Fulbright DK. Osteoma of the tongue. *J Oral Maxillofac Surg* 1993;51 (6):697-9.
- 3) Monserrat M. Osteome de la langue. *Bull Soc Anat* 1913;88: 282-3.
- 4) Lee BJ, Ahn SK, Lee SH, Lee WS. Osteoma of the tongue. *Int J Dermatol* 1994;33 (8):602-3.
- 5) Kim SC, Kim SB, Kim JH, Park SY. A case of osteoma of the tongue. *Korean J Otolaryngol* 2005;48 (11):1411-3.
- 6) Cho SH, Lee DW, Lee YS, Paik SS. A case of osteoma of the tongue. *Korean J Otolaryngol* 2006;49 (3):346-8.
- 7) Lutcavage GJ, Fulbright DK. Osteoma of the tongue. *J Oral Maxillofac Surg* 1993;51 (6):697-9.
- 8) Vered M, Lustig JP, Buchner A. Lingual osteoma: a debatable entity. *J Oral Maxillofac Surg* 1998;56 (1):9-13.
- 9) Engel P, Cherrick HM. Extraosseous osteomas of the tongue. *J Oral Med* 1976;31 (4):99-103.
- 10) Wesley RK, Zielinski RJ. Osteocartilainous choristoma of the tongue. *Clinical and histopathologic considerations. J*

- Oral Surg* 1978;36 (1):59-61.
- 11) Markaki S, Gearty J, Markakis P. *Osteoma of the tongue. Br J Oral Maxillofac Surg* 1987;25 (1):79-82.
  - 12) Maqbool M, Ahmad R, Ahmad R. *Osteoma of the tongue: a rare cause of upper airway obstruction. Indian Pediatr* 1992; 29 (11):1429-31.
  - 13) 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):316-8, 320, 325.
  - 14) Gossios K, Bai M, Psilas K. *Giant aggressive osteoma of the frontal sinus. Clin Radiol* 1999;54 (3):193-6.
  - 15) Park JW, Spiess A, Osguthorpe JD. *Benign calcified mass in tongue. Otolaryngol Head Neck Surg* 2005;132 (1):146-7.
  - 16) Moore K, Worthington P, Campbell RL. *Firm mass of the tongue. J Oral Maxillofac Surg* 1990;48 (11):1206-10.