

## 혀에 발생한 장관성 낭종

- 1예 보고 -

연세대학교 의과대학 병리학교실

심 정 연 · 김 호 근

### Enteric Cyst in the Tongue

- A case report -

Jeong Yun Shim, M.D. and Hoguen Kim, M.D.

Department of Pathology, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

A case of enteric cyst in the anterior two-thirds of the tongue is reported. The patient, a 42 day-old female infant, presented with a protruding tongue mass since birth. Under the impression of ectopic thyroid gland or leiomyoma, complete resection was performed. The mass proved to be an enteric cyst, lined by small intestinal mucosa with an underlying coat of smooth muscle. Enteric cysts arising in the tongue is rare and only 8 such cases have been reported in the literature. (*Korean J Pathol* 1997; 31: 1237 ~ 1239)

**Key Words:** Enteric cyst, Tongue, Small intestinal mucosa

장관성 낭종은 전장의 중복성 낭종, 소화기관의 중복성 낭종, 원장성 낭종 등의 여러 이름으로 명명되는 선천성 낭종 병변의 하나로서 영아때부터 발견되는 희귀한 질환이다.<sup>1</sup> 호발부위는 종격동, 복강 내부 및 척추관 등인데 그외 다른 장기에서도 드물게 발생한 보고가 있다. 이 질환은 흔히 척추 이상이나 소장의 중복이 동반되기 때문에 진단뿐만 아니라 진단후 임상적 관찰이 중요하다. 저자들은 혀에 발생한 장관성 낭종 1예를 경험하여 이의 가능한 발생 기전과 함께 임상적, 병리학적 특성 및 의의를 보고하고자 한다.

**증례:** 생후 42일된 남아가 출생 당시부터 발견된 혀의 종괴를 주소로 입원하였다. 과거력상 환아는 임신 40주에 제왕절개에 의해 출생하였고 당시 몸무게는 3200 gm이었으며 주산기 가사나 다른 질환은 없었다. 이학적 검사상 종괴는 혀의 배측 유착유두 전방에 위치하였다. 이소성 갑상선을 감별하기 위하여 갑상선 주사를 시행하였으나 음성 소견이었다. 흉부 X선 검사상 종격동에 종괴는 없었다. 평활근종 의심하에 입원 3일에 종괴 절제술을 시행하였다. 육안 검사상 종괴는 둥글고 회백색으로 크기는 0.8×1×1 cm이었다. 경도는 고무질 같았고 내부에서는 연한 녹갈색의 점액양 물질이 관찰되었다 (Fig. 1). 광학현미경 소견상 낭종은 주로 배상세포와 원주흡수세포로 구성된 소장 상피로 피복되어 있었고 상피하에는 잘 발달된 평활근 구조가 관찰되었으며 근층 사이에는 근층간신경총도 존재하였다 (Fig. 2,

접 수: 1997년 5월 15일, 게재승인: 1997년 8월 5일  
주 소: 서울 서대문구 신촌동 134번지, 우편번호 120-752  
연세대학교 의과대학 병리학교실, 심정연

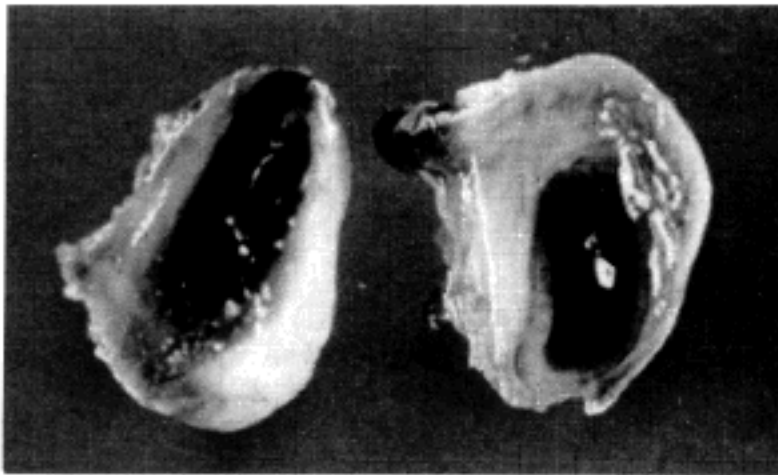


Fig. 1. Cut surface of the cystic tongue mass containing greenish mucoid material.

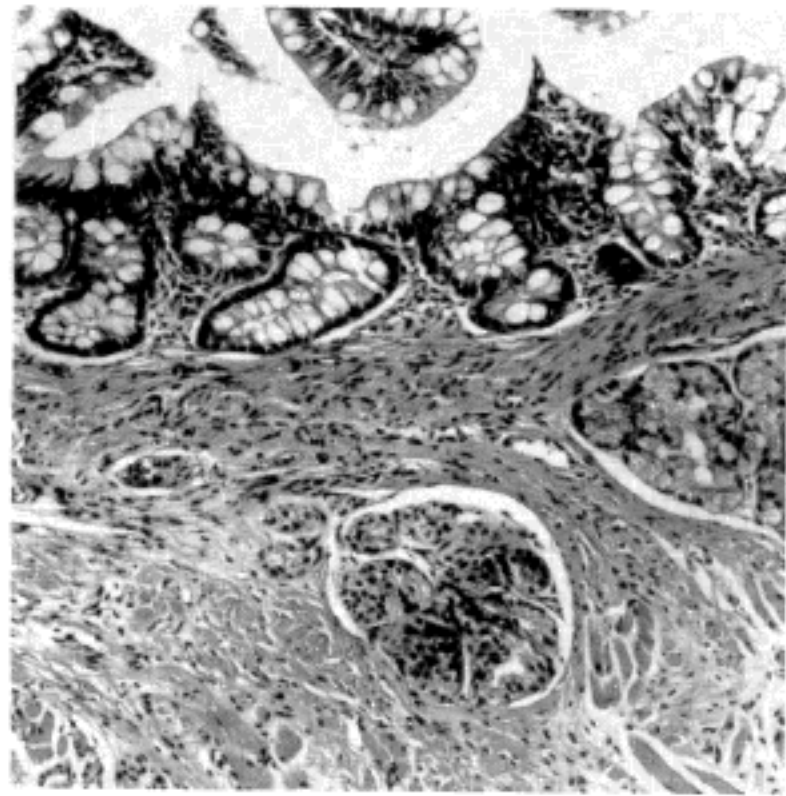


Fig. 3. Note the myenteric plexus within smooth muscle coat of cyst wall.

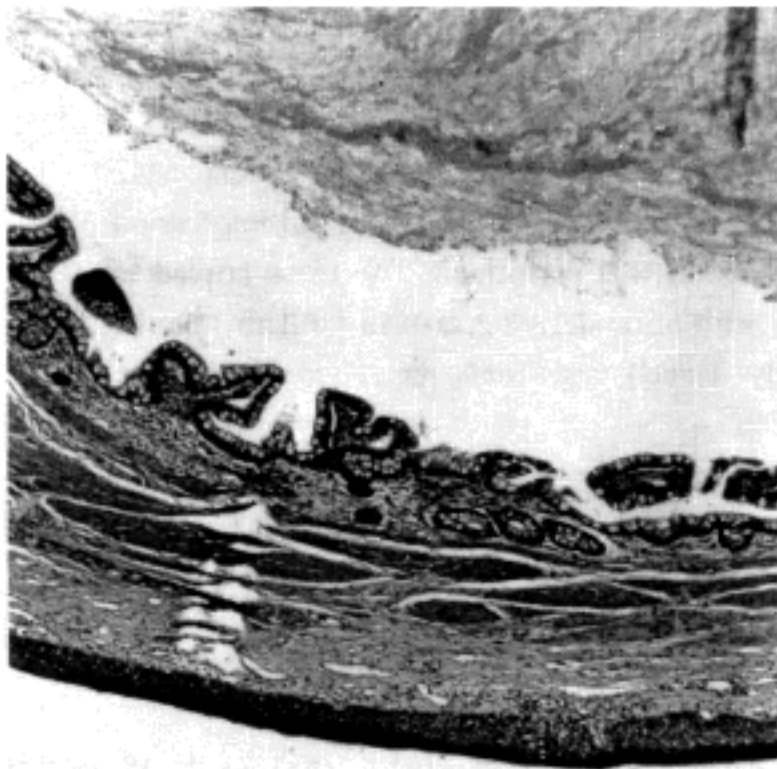


Fig. 2. Cyst wall is consisting of the small intestinal mucosa lined by columnar absorptive cells and goblet cells and underlying smooth muscle coat.

3). 이상의 소견은 정상 소장 구조물로 구성된 낭성 종괴로 혀에 발생한 장관성 낭종과 일치하였다.

**고찰:** 인체에 발생하는 장관성 낭종에 관한 기술로서 첫 예로 생각되는 것은 1881년 Roth가 종격동의 낭종이 척추관과 연결되어 있고 심모상피로 피복된 장간막내의 낭종과 회장의 중복이 함께 발생한 예를 기술하였다. 장관성 낭종의 병인론은 아직 정립되어 있지 않으나 소화기관의 발생과정중 정상적 재관통이 일어나지 않아서 생기는 중복성 낭종이라는 가설과 신경장관과 관계되어 발생한다는 가설이 있다.<sup>2</sup> 신경장관과 관계된다고 주장하는 가설

중 하나인 분열 척삭 이론 (split notochord theory)에 의하면 태생기 발달과정중에 내배엽과 외배엽의 유착이 일어나고 견인에 의해 계실이 형성되었다가 결국 낭종이 생기며 척삭은 분열되거나 개산된다고 한다. 또한 이 유착 때문에 척추체의 형성과정에서 축방의 중배엽성 척추 원기가 완전히 둘러싸이지 않게 되면 척추반측이상, 척추이분증 등의 척추의 결손이 잘 동반된다. 그러나 유착이 적거나 낭종 형성 이후에 없어지는 경우 또는 척삭의 편위가 적은 경우에는 척추의 결손이 경미할 수 있다. 본 예는 장관성 낭종이 혀에 생긴 예로서 이상의 척추 변화는 없었다.

혀에 발생한 장관성 낭종은 8개가 보고되어 있으며<sup>4</sup> 그 발생기전은 격리된 내배엽 조직의 일부가 혀의 발생과 연관되어 생긴 것으로 생각된다. 혀는 제 1세궁의 간엽조직이 증식되어 형성된 내측 설아와 두개의 설아에 의해 형성된 전방 2/3과 제 2세궁으로 부터 형성된 저세절과 제 3, 4세궁으로 부터 형성된 하인두 융기에 의해 형성된 후방 1/3의 융합으로 발생한다. 따라서 본 예는 구강 발생과정중 박리된 내배엽 구조물이 원위 설아의 융합이 일어날 시기에 참여하여 발생한 것으로 사료된다.<sup>5,6</sup>

장관성 낭종에서 관찰되는 조직학적 구조는 위점막과 장점막 구조와 이를 둘러싸는 정상 장벽의 구조물이 대부분이고 드물게는 호흡상피나 편평상피층으로 피복될수 있다고 알려져있다. 장관성 낭종에

나타날 수 있는 이차적인 변화는 피복 상피에 따라 다른데 위점막으로 피복된 경우는 궤양과 이에 따른 이차적인 변화가 자주 동반되며 척추 이상도 44%에서 동반된다고 알려져있다.<sup>1</sup> 본 예는 전 부위가 소장점막으로 피복되어 있었고 거의 완벽한 소장벽 구조물을 형성하고 있었던 예로서 이차적 조직학적 변화는 없었으며 전신적으로 동반된 척추 이상도 없었다.

장관성 낭종과 감별이 필요한 질환은 임상적으로 발생부위에 따라 그 부위에 낭성 종괴를 형성하는 모든 질환이 포함되겠지만 병리학적으로는 기관지성 낭종과의 감별이 중요하다. 기관지성 낭종도 장관성 낭종과 비슷한 기전으로 발생하나 피복 상피가 주로 호흡상피인 점과 낭벽 구조물에 연골등이 자주 포함되는 특징이 있어서 본 예에서는 감별이 용이하였다.

결론적으로 저자들은 생후 42일된 남아에서 출생 당시 부터 발견된 혀의 장관성 낭종 1예를 경험하였는데 매우 드문 부위에 발생한 예로서 이의 가능한 발생기전과 함께 혀에 발생하는 질환중 향후 임상적, 병리학적으로 감별진단에 포함되어야 할 질환으로 생각하여 보고하는 바이다.

## 참 고 문 헌

1. Chitale AR. Gastric cysts of the mediastinum. *J Pediatr* 1969; 75: 104-10.
2. Ming SC, Goldman H. Pathology of the gastrointestinal tract. 1st ed. Philadelphia: WB Saunders, 1992: 133-5.
3. Beardmore HE, Wigglesworth FW. Vertebral anomalies and alimentary duplications. Clinical and embryological aspects. *Pediatr Clin North Am* 1958; 5: 457-74.
4. Mirchandani R, Sciubba J, Gioster S. Congenital oral cyst with heterotopic gastrointestinal and respiratory mucosa. *Arch Pathol Lab Med* 1989; 113: 1301-2.
5. Woolgar JA, Smith AJ. Heterotopic gastrointestinal cyst of oral cavity. A developmental lesion? *Oral Surg* 1988; 66: 223-5.
6. Willner A, Feghali J, Bassila M. An enteric duplication cyst occurring in the anterior two-thirds of the tongue. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1991; 21: 160-77.