영아의 혀에 발생한 육아조직 1례

이희정 · 윤은실 · 최준혁* · 최광해

영남대학교 의과대학 소아과학교실, 병리학교실*

A Case of Granulation Tissue of the Tongue in Infant

Hee Jung Lee, Eun Sil Yun, Joon Hyuk Choi*, Kwang Hae Choi

Department of Pediatrics, Department of Pathology,
College of Medicine, Yeungnam University, Daegu, Korea*

—Abstract—

Tongue tumors of pediatric patients are the most common soft tissue tumor of pediatric oral and maxillofacial tumors. There are many kind of pediatric tongue lesions such as hemangioma, lymphangioma, papilloma, and cyst. Most of these lesions are benign, but malignant tumors of tongue may be occurred. Therefore, malignancy should be ruled out. Sometimes, tongue lesions are present with dyspnea, dysphagia, dysarthria, bleeding, or cosmetic problem. We experienced a case of chronic inflammatory mass on posterior 1/3 of the tongue in 4 month old female patient. Swallowing difficulty and respiratory distress symptom occurred because of tongue mass effect. The tongue mass was confirmed as granulation tissue by microscopic examination. After excision of tongue mass, she had no problem with swallowing and breathing.

Key Words: Tongue mass, Infant, Granulation tissue

서 론

소아에서 혀에 발생하는 종괴는 비교적 드물며, 대부분 양성으로 양성 종양, 낭종, 용종, 염증 등 그 종류가 다양하며, 악성 종양은 비

교적 드물다.¹⁻⁶⁾ 혀에 생기는 병변들은 무증상이거나 혹은 생기는 위치에 따라 호흡곤란이나 출혈, 혹은 외형적인 문제 등의 증상을 나타내기도 한다.

저자들은 혀의 중앙부에 발생한 덩어리로

인한 수유 곤란과 호흡 곤란이 발생하여 치료한 1례를 경험하였기에 보고하는 바이다.

증 례

환아 : 4개월, 여아

주소 : 호흡곤란과 수유 곤란

현병력 : 환아는 이전에 건강하게 지내던 중, 내원 3주전부터 수유량이 줄었으며, 내원 약 일주일전 우연히 혀의 중앙부에 덩어리가 발견되어, 소아과로 전과되기 7일전 본원 이비인후과에서 조직생검시행 후 육아조직으로 진단되어 스테로이드 복용을 시작하였다. 그 후 기침이 시작되고, 증상이 심해지고 청색증과 빈호흡 있으면서 수유 곤란이 악화되어 소아과로 전과되었다.

과거력 : 만삭 제왕절개로 출생하였으며, 출생 전후의 문제는 없었다.

Fig. 1. About 1cm sized soft polypoid lesion is seen on posterior 1/3 of the tongue.

진찰 소견 : 입원당시에 환아는 그렇거름과 호흡시 늑골 함몰과 비익 확장, 입술의 청색증 소견과 함께 침을 삼키지 못하여 다량의 구강 분비물이 관찰되었다. 활력징후는 혈압 90/55 mmHg, 맥박 130회/분, 호흡수 50회/분, 체온 37°C이었다. 두경부 진찰에서 결막은 창백하지 않았고 공막에 황달 소견 없었으며, 인두 발적은 없었다. 혀의 후방부의 중앙에 약 1 cm 정도의 선홍색의 표면이 매끄럽고 비교적 평평한 용종형의 덩어리가 관찰되었다(Fig. 1). 흉부 진찰에서 호흡음은 심하게 감소되어있었으며 수포음이 들렸다. 심박동은 규칙적이었으며 심잡음은 들리지 않았다. 그 외에는 특이 소견은 없었으며, 신경학적 검사는 정상이었다.

검사 소견 : 입원 당시 말초 혈액 검사에서 백혈구 수 $18,990 /\text{mm}^3$ (다핵구 71%, 림프구 27%), 혈색소 11.8 g/dL, 혈소판 $695,000 /\text{mm}^3$ 이었고, 적혈구 침강 속도는 23 mm/hr, CRP 0.195 mg/mL 이었다. 생화학 검사에서 전해질 Na^+ 141 mEq/L, K^+ 5.3 mEq/L, Cl^- 107 mEq/L, BUN/Cr 10/0.3 mg/mL, AST/ALT 46/42 IU/L이었다. 동맥혈 가스 분석상 pH

Fig. 2. Chest radiograph. Increased haziness is seen in both lung field.

Fig. 3. Sagittal T1-weighted image of Brain MRI. Well defined polypoid mass is noted in mid portion of the tongue is with well enhancement (white arrow).

7.4, PaO₂ 37.3 mmHg, PaO₂ 51 mmHg, BE -0.5 mmol/L, HCO₃ 23.3 mmol/L, SaO₂ 86.7 %이었다. 혈청 CMV IgM이 양성이었고, 객담 CMV PCR 양성이었다.

방사선 소견 : 단순 흉부 방사선 촬영에서 양측 미만성 폐침윤 소견이 있었다(Fig. 2).

Fig. 4. Gross finding. The two piceses of grayish white, lobulated soft tissue are present, measuring 1.8 x 1.5 x 1.0 and 0.8 x 0.5 x 0.3 cm.

임상 경과 및 치료 : 혀의 덩어리로 인해 수유 곤란때문에 음식물이 폐로 흘러들어간 폐 흡인성 폐렴의 가능성을 생각하여 2세대 cephalosporine, aminoglycoside, clindamycin을 투여하였고 산소를 투여하였다. 입원 제 3 병일에 빈호흡이 분당 70회로 관찰되면서 경피적 산소 분압이 60% 까지 떨어지고, 단순 흉부 사진에서 양측 폐에 간유리혼탁화가 나타나는 등 급성 호흡 곤란 증후군의 임상 양상이어서 인공호흡기 치

Fig. 5. Microscopic finding. (A) The tongue mass is round, polypoid-shaped and shows ulceration on the surface (Hematoxylin and eosin stain, x10). (B) There are the proliferation of capillary vessels and inflammatory cells infiltrates, mainly neutrophils, eosinophils and lymphocytes (Hematoxylin and eosin stain, x200).

료를 시작하였으며, 광범위 항생제와 정맥 글로불린을 투여하였다. 입원 제 6 병일 폐에 양쪽폐의 기흉이 발생하여 흉관 삽입을 시행하였다. 입원 제 23병일에 폐의 병변이 호전되고 전신상태가 좋아져서 인공호흡 이탈을 시행하였다. 이후에도 환아는 허의 덩어리로 인해 우유병 수유가 불가능하였으며, 소량의 산소 투여가 계속 필요하였다. 허의 덩어리는 광범위 항생제 치료에도 크기가 감소하지 않고 증가하였으며, 입원 제 46병일에 시행한 MRI에서 허의 종양부위에 조영이 잘 되는 경계가 분명한 용종형 덩어리가 관찰되었다(Fig. 3). 허의 덩어리를 수술적 제거를 하였으며, 병리조직소견에서 만성 염증과 육아조직으로 진단되었다(Fig 4, 5). 수술 후 4일째부터 우유병 수유를 시작하였으며, 더 이상의 수유곤란이나 호흡곤란 등의 증상이 없어 퇴원하였다.

고 찰

소아 환자에서 구강과 악안면에 발생하는 종양에 대한 다양한 보고가 있어왔으나,²⁻⁶⁾ 아직까지 그 빈도가 정확하게 밝혀지지 않았으며, 어른에 비해 종류도 매우 다양하다. 그 중에서도 허에 발생하는 종양의 빈도는 높지 않으나,^{4, 6)} 허의 종양은 전체 구강과 악안면 종양의 연부 조직 종양 중에는 가장 많은 비중을 차지하며, Sato 등²⁾은 26%, Tanaka 등³⁾은 20%, Trobs 등⁵⁾은 21%를 차지한다고 보고하였다. Sato 등²⁾의 보고에서는 허에 발생한 종양은 모두 양성이었으며 종류로는 혈관종(47.6%), 림프관종(23.3%), 유두종(7.6%), 신경초종(6.1%)의 순이었다. Tanaka 등³⁾의 보고에서는 허의 종양은 95%가 양성으

로 대상자 23명 중 1명만이 악성 종양이었고 유두종의 빈도가 가장 높았으며(34.7%), 혈관종(26.0%), 림프관종(21.7%), 신경초종(8.6%)의 순이었고, 악성 간엽종 1례만이 악성 종양이었다. Trobs 등⁵⁾의 보고에서는 허의 종양은 모두가 양성이었으며 섬유 상피종과 유두종이 각각 15%로 가장 높은 빈도를 나타냈으며, 다음이 혈관종, 림프관종, 낭종이 각각 10%로 나타났다. 위의 여러 개의 보고에서와 같이 허에 발생하는 종양들은 그 종류가 매우 다양하고 대부분이 양성이지만, 매우 드문 경우이기는 하나 악성 종양이 발생할 가능성이 있으므로 반드시 감별해 주어야 한다.^{3, 6)}

허의 병변만을 대상으로 한 보고들을 살펴보면, Horn 등⁴⁾의 보고에서는 모두가 양성이었으며, 편평 유두종, 혈관종, 과오종, 상피성 낭종, 점액성 낭종 등이 있었으며, 본 증례에서와 같은 만성 염증이 1례 있었으나 위치가 허의 앞쪽에 있었으며 증상은 없었다. 역시 허의 종양만을 대상으로 한 Zalzal 등¹⁸⁾의 보고에서는 5명의 대상 환자 중 지방모세포종과 과오종이 각각 2명, 이소성 신경교세포종이 1명으로 나타났다. 그 외에도 화농성 육아종,⁸⁾ 이소성 갑상선과 갑상선 설종,^{9, 15, 19)} 선천성 전장 중복종,¹⁰⁾ 장낭종,¹¹⁾ 양성 상피성 낭종,¹²⁾ 낭선종,¹³⁾ 평활근종,¹⁴⁾ 이소성 위낭종,¹⁶⁾ 신경초 점액종¹⁷⁾ 등 허에 발생한 종양에 대한 여러 증례 보고들이 있었다. 본 증례에서는 염증성 육아조직 덩어리가 허의 뒤쪽에 위치하여 수유곤란이 있었으며 수술로 제거하기 전까지 크기가 약 2cm까지 증가하여 호흡에도 영향을 미쳐 지속적인 산소투여가 필요하였는데, 이번 증례에서 경험하였던 것처럼 허의 뒤쪽에 위치한 염증성 육아조직의 덩어리로 인한 호흡곤란과

수유곤란이 있었던 보고는 없었다.

혀의 종양은 무증상이거나 혹은 위치에 따라 다른 증상을 나타낼 수 있다. 전방에 위치한 병변의 경우 대부분 호흡과 소화기계의 폐색을 나타내지 않아 경미한 증상을 나타내거나 혹은 무증상인 경우가 많다. 후방에 위치한 병변의 경우에는 호흡 곤란이나 연하 곤란 같은 급성 증상을 동반하는 경우가 많고, 혀의 전체를 침범하는 미만성 병변의 경우에는 만성적인 혀의 돌출이나 호흡곤란, 연하 곤란, 발음 장애나 타액 과다 등의 증상이 나타날 수 있다. Horn 등⁴⁾의 보고에서 17명의 대상 환자 중 70%인 12명이 무증상이었으며 그 외에는 호흡 곤란을 동반한 경우가 가장 많았으며 구음장애나 출혈을 동반한 경우도 있었다. 그 외에도 호흡곤란, 수유곤란을 동반한 혀의 종괴에 대한 여러 보고가 있었다.^{7, 9, 11-15, 18)} 본 증례에서 환자의 경우에는 혀의 뒤쪽 1/3에 존재하는 덩어리가 수유 곤란을 야기하였고, 조직검사 결과 만성 염증과 육아조직으로 진단되어 스테로이드를 투여하였는데, 이로 인하여 거대세포 바이러스가 활성화되어 급성 폐렴이 발생하였으며 점차 진행되어 호흡부전을 초래한 것으로 생각된다. 환아는 덩어리를 수술적 제거 후에 수유가 가능하게 되었고, 호흡 곤란 증세도 호전을 보였다. 이 환아에서 염증성 육아조직 덩어리가 발생한 원인은 확실치 않으나 입원 3주 전 수유량이 줄어서 보호자가 입안을 보니 혀의 뒤쪽 중앙에 하얀 이물질이 있어서 손수건으로 닦아낸 후 약간의 출혈이 있었다고 하는데 아마도 이때 혀에 손상을 주어서 발생하지 않았나 생각된다.

소아기에 발생하는 혀의 종괴가 드물기는 하나 연하곤란이나 호흡곤란 같은 증세를 보일

때는 반드시 제거해 주어야 하며, 종괴가 환아에게 별다른 증상을 나타내지 않는다면 세심한 관찰과 함께 경과 관찰을 하면서 수술을 미룰 수도 있다. 혀의 종괴를 제거하는 것은 호흡이나 연하 같은 기능을 되살릴 뿐 아니라, 적절한 발음, 맛, 감각과 적절한 구강안면 발달을 할 수 있게 한다. 종양의 발생 시기와 경과, 그리고 위치 등에 따라 적절한 치료를 해야 할 것이다.

참 고 문 헌

1. Charles DB, Margaretha LC, Sylvan ES, Joseph ED, Cuneyt MA, Robert FY, Ellis MA. Pediatric Otolaryngology. 4th ed. Philadelphia: Saunders; 2003. p. 1269-75.
2. Sato M, Tanaka N, Sato T, Amagasa T. Oral and maxillofacial tumours in children: a review. Br J Oral Maxillofac Surg 1997 Apr;35(2):92-5.
3. Tanaka N, Murata A, Yamaguchi A, Kohama G. Clinical features and management of oral and maxillofacial tumors in children. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1999 Jul;88(1):11-5.
4. Horn C, Thaker HM, Tampakopoulou DA, De Serres LM, Keller JL, Haddad J Jr. Tongue lesions in the pediatric population. Otolaryngol Head Neck Surg 2001 Feb;124(2):164-9.
5. Trobs RB, Mader E, Friedrich T, Bennek J. Oral tumors and tumor-like lesions in infants and children. Pediatr Surg Int 2003 Nov;19(9-10):639-45.
6. Velcek FT, Klotz DH, Hill CH, Ladogana LE, Kottmeier PK. Tongue lesions in children. J Pediatr Surg 1979 Jun;14(3):238-46.
7. Akyol MU, Orhan D. Lingual tumors in

- infants: a case report and review of the literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2004 Jan;68(1):111-5.
8. Akyol MU, Yalciner EG, Dogan AI. Pyogenic granuloma (lobular capillary hemangioma) of the tongue. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2001 May;11 58(3):239-41.
9. Chanin LR, Greenberg LM. Pediatric upper airway obstruction due to ectopic thyroid: classification and case reports. *Laryngoscope* 1988 Apr;98(4):422-7.
10. Eaton D, Billings K, Timmons C, Booth T, Biavati JM. Congenital foregut duplication cysts of the anterior tongue. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2001 Dec;127(12):1484-7.
11. Grime PD. Giant enterocystoma within an infant's tongue. *J Laryngol Otol* 1990 Oct; 104(10):814-8.
12. Harari MD, Clezy JK, Sharp E. Glossal cysts in four infants. *Arch Dis Child* 1987 Nov; 62(11):1173-4.
13. Kacker A, de Serres LM. Congenital cystadenoma of the tongue in a neonate case report with review of literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2001 Jul;30:60(1):83-6.
14. Kotler HS, Gould NS, Gruber B. Leiomyoma of the tongue presenting as congenital airway obstruction. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1994 Apr;29(2):139-45.
15. Kuint J, Horowitz Z, Kugel C, Topper L, Birenbaum E, Linder N. Laryngeal obstruction caused by lingual thyroglossal duct cyst presenting at birth. *Am J Perinatol* 1997 Jul; 14(6):353-6.
16. Lalwani AK, Lalwani RB, Bartlett PC. Heterotopic gastric mucosal cyst of the tongue. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1993 Feb;108(2):204-5.
17. Penarrocha M, Bonet J, Minguez JM, Vera F. Nerve sheath myxoma (neurothekeoma) in the tongue of a newborn. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2000 Jul; 90(1): 74-7.
18. Zalzal GH, Patterson K, Cotton RT. Congenital tumors of the dorsum of the tongue. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1994 Jan;28(2-3):219-27.
19. Noyek AM, Friedberg J. Thyroglossal duct and ectopic thyroid disorders. *Otolaryngol Clin North Am* 1981 Feb;14(1):187-201.