

## 이하선에 발생한 기저세포선종

연세대학교 의과대학 외과학교실

최일섭 · 박정수 · 김춘규

=ABSTRACT=

### Basal Cell Adenoma of the Parotid Gland

IL Sup Choi, M.D., Cheong Soo Park, M.D. and Choon Kyu Kim, M.D.

*Department of Surgery, Yonsei University College of Medicine*

The basal cell adenoma of the parotid gland is rare benign disease, first described and adequately documented as a distinctive tumor from benign mixed tumors (pleomorphic adenoma) by Kleinsasser and Klein in 1967. This tumors is an isomorphic epithelial tumor of salivary gland, characteristic of absence of myoepithelial cells which are present in pleomorphic adenoma and other salivary gland tumors.

Clinicopathologically the tumors is very difficult to differentiate with pleomorphic adenoma or adenoid cystic carcinoma. The prognosis is excellent by complete extirpation of the tumor. The present report presents two cases of basal cell adenoma of the parotid gland seen in 63 year old man and 71 year old man in one-year period at Department of Surgery, Yonsei University College of Medicine.

### 서 론

이하선에 발생하는 기저세포선종(basal cell adenoma)은 전체 타액선 종양중 약 2%의 발생빈도를 보이는 드문 질환으로 1967년 Kleinsasser와 Klein이 처음으로 보고한 이래 간헐적인 증례보고만 있어왔다. 최근 전자현미경등을 이용하여 그 병인론에 대해 여러가지 주장이 나오고 있으나 정립된 정설은 아직 없는 실정이다.

본 종양의 기본 특징은 isomorphic epithelial

tumor로서 mesenchymal component가 없이 균일한 기저세포들이 규칙적인 배열을 보이면서 종양을 구성하고 있다는 것이다. 임상적인 특징은 pleomorphic adenoma와 비슷하나 조직학적 소견은 adenoid cystic carcinoma와 감별이 어렵고 비교적 노년층에 발생하고 병력기간이 더 길며 절제후 재발이 거의 없다는 것이다.

저자들은 1985년 1월부터 1986년 12월까지 연세대학교 의과대학 외과학교실에서 이하선에 발생한 기저세포 선종 2예를 치험하였기에 이를 문헌 고찰과 아울러 보고하는 바이다.

## 증 례

### 증 례 1 :

63세된 남자환자가 좌측 이하선부위에 우연히 발견된 종괴를 주소로 1985년 5월 본원 외과에 입원하였다. 환자는 약 10일전 좌측 견갑부 통증으로 개인병원에서 치료받던중 우연히 상기 증상을 발견하고 본원에 내원하였다. 과거력상 4년전 좌측 신장의 신세포암으로 신절제술을 시행받았고 3년전에는 당뇨병으로 치료받았으나 그 이후 식이요법만으로 치료가 되었다한다. 가족력상 특이사항은 없었다. 이학적 소견상 혈압 120/80mmHg, 맥박수 80/min였으며, 좌측 이하선의 후방에 직경 2cm의 경계가 분명하고 단단하며 압통이 없는 종괴가 촉지되었다. 안면 신경마비나 경부 임파절 비대등의 소견은 없었다. 복부에는 좌측 측배부에 수술 반흔이 보인것 외에는 별 특이소견은 없었다.

말초 혈액검사, 뇨검사, 흉부 X-선 검사, 간기능 검사및 심전도 검사등은 정상 범주였다.

입원 5일째 좌측 이하선 종양 진단하에 좌측

이하선 전절제술을 시행하였다. 종양은 직경 2cm 크기로 well-encapsulation 되어 있었고 둥글고 단단하였으며 주위의 정상 이하선조직과는 구별이 확연하였으며 안면 신경의 근위부(main trunk)에 인접한 심엽에 위치해 있었다. 먼저 표재엽절제술을 시행하고 안면신경을 잘 보존하면서 종괴를 포함한 심엽을 완전히 절제하였다. 수술후 2년이 지난 현재까지 환자는 재발이 없이 건강하게 생존하고 있다.

병리소견 : 2×2×2cm의 구형의 종괴가 심부엽(deep lobe)에 위치하고 있었으며 shiny하고 smooth한 capsule로 둘러싸여 있었다. 단면은 homogenous 하였으며 연한 갈색을 띤 myxoid component로 구성된 solid mass였다.

광학현미경 소견상 크기가 균일한 기저세포(basal cell)들이 종양을 형성하고 있었으며 이 종양은 eosinophilic septal material에 의해 분할된(separation) trabecular pattern을 하고있었고 septa 근처의 종양세포들은 palisade 모양을 취하고 있었다. Myoepithelial cell은 볼수 없었고 mitotic figure나 종양세포의 extracapsular extension도 볼수 없었다. 또한 cystic change나 calcification도 없었다(Fig. 1).

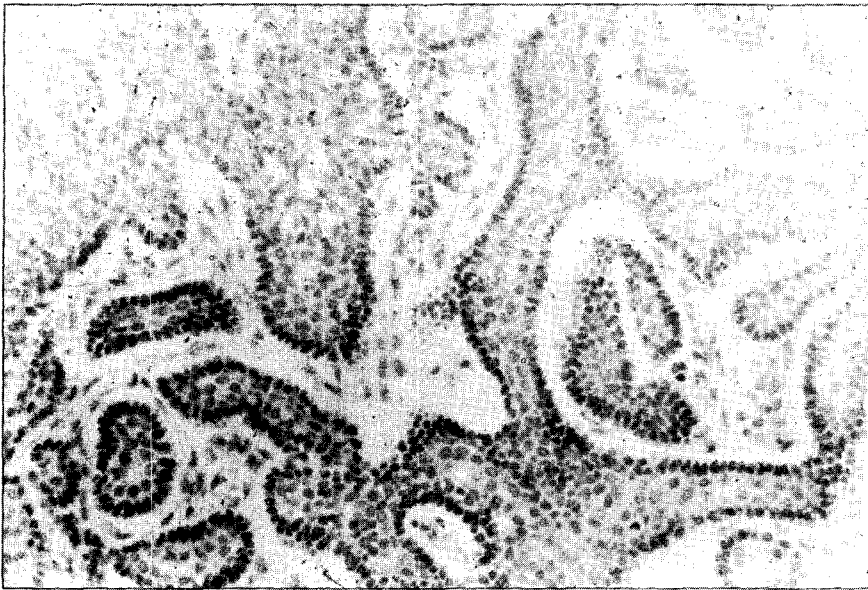


Fig. 1. Basal cell adenoma. The tumor cells are arranged in groups, columns and trabecula fashion surrounded by palisade layer (H & E × 200).

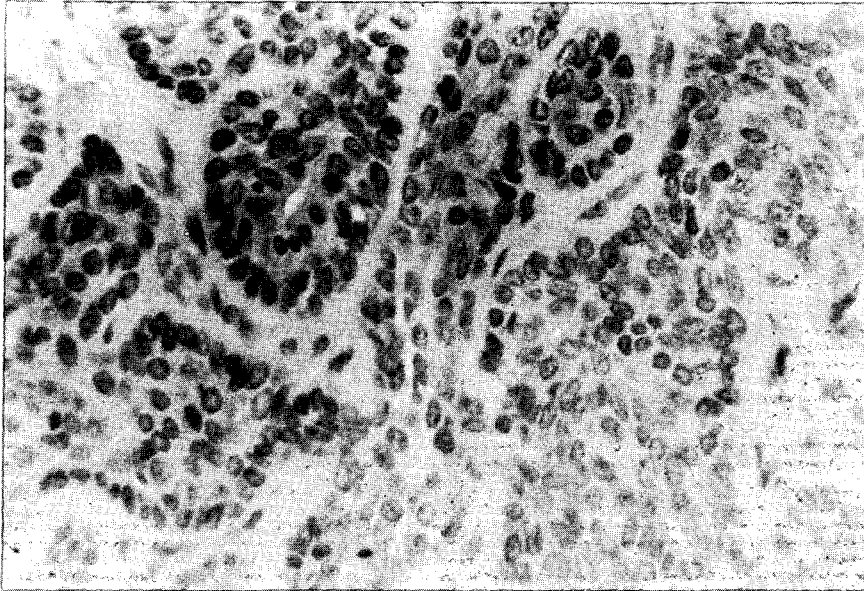


Fig. 2. Basal cell adenoma. High power view of tumor cells having uniform ovoid nuclei (H & E. x400).

증례 2:

71세된 남자 환자가 약 5개월전부터 좌측 이하선 부위에 종괴가 촉지되어 1986년 6월 본관 외과에 입원하였다. 환자는 평소 건강하였으며 5개월 전 상기 증상을 발견하였으나 별 치료없이 지냈다고 한다. 그러나 종괴가 조금씩 커지는 듯하여 본원에 내원하였다. 가족력 및 과거력상 특이사항은 없었다.

내원당시 이학적 소견상 혈압 110/70mmHg, 맥박수 76/min였으며 좌측 이하선부위에 직경 3cm 크기의 경계가 분명하고 부드러운 종괴가 있었으며 압통은 없었다. 안면 신경마비 소견이나 주위 임파절 비대등은 관찰되지 않았고 기타 이학적 소견도 정상 범주이내이었다.

말초혈액검사, 뇨검사, 흉부X-선검사, 심전도 및 간기능검사는 모두 정상이었다.

입원 3일째 좌측 이하선 종양 진단하에 좌측 이하선 전절제술을 시행하였다. 종양은 심엽에 위치하였고 직경 3cm의 둥근 모양이었으며 well-encapsulation되어 있었고 종양내에는 진한 갈색의 액체가 차있는 낭종을 형성하고 있었다. 안면 신경은 잘 보존되어 있었고 주위의 임파절 비대등은

관찰되지 않았다.

수술후 1년이 경과한 현재 환자는 재발이 없이 잘 지내고 있다.

병리소견 : 심엽의 well-encapsulation된 종괴로 다발성의 낭종을 형성하고 있었으며 표면은 homogeneous gray한 색을 띠고 있었다. 광학현미경상 균일한 기저세포들이 fibrous septum에 의해 cluster를 형성하고 있었으며 핵은 uniform하고 ovoid하였고, 낭종을 형성한 종양세포들은 다소 flattened 되었으며 mitosis나 주위 침윤등은 관찰되지 않았다(Fig. 2).

고찰

이하선에 발생하는 기저세포선종은 1967년 Kleinsasser와 Klein<sup>7)</sup>이 처음으로 임상적 병리학적 특성을 보고한 이래 많은 사람들이 간헐적으로 보고를 하였으며 그 이전에는 대부분이 pleomorphic adenoma의 일종으로 취급되어 왔다<sup>2)3)6)9)10)</sup>.

이 종양의 기본 특징은 pleomorphic adenoma와는 달리 mesenchymal component가 없으며 균일한 기저세포(basal cell)들이 규칙적인 배열을 보이면서 집단(cluster)을 형성하고 있는 것이다. 이런

특성으로 인하여 과거에는 true adenoma, basaloma, atypical pleomorphic adenoma, carcinoid tumor, trabecular adenoma, canalicular adenoma 등으로 명명되어왔다<sup>2)</sup>.

이 종양은 어느 타액선에서나 발생되지만 대부분이 이하선에서 발생하며 악하선이나 상순(upper lip)의 소타액선(minor salivary gland)에서도 발생하며<sup>3)</sup> 저자마다 그 발생빈도에 약간의 차이는 있으나 약 2%로 보고되어있다. Kleinsasser와 Klein<sup>7)</sup>은 500예의 타액선 종양중 2%가, Nagao등<sup>11)</sup>은 531예의 이하선 종양중 7.5%가 본 종양이라 하였다.

발병 연령은 대부분의 문헌에서 60대 이후에 가장 많이 발생하는 것으로 보고하고 있으나 Kroll 등<sup>8)</sup>은 생후 7일된 신생아에서, Thackray등<sup>12)</sup>은 생후 1개월 15일된 아이에서 발생한 예를 보고하기도 하였는데 이들은 모두 선천성 기저세포 선종으로 생각되고있다<sup>1)</sup>.

임상적으로 pleomorphic adenoma와는 감별이 어려우나 몇가지 차이점은 있다. 기저세포 선종은 pleomorphic adenoma보다 더 노년층에 발생하여 평균 10년정도 늦게 발병된다. Nagao등<sup>11)</sup>은 50대 이후에 37.5%가 발생하여 pleomorphic adenoma의 24.4%보다 많은 발생빈도를 보였다고 하였으며 또한 종양의 크기는 대체로 pleomorphic adenoma보다 작아 5cm이하가 80%이상으로 대부분을 차지하였다고 하였다. 병력기간도 수년이상의 오랜 기간을 갖고있으며, 이학적 소견상 경계가 분명하고 단단하게 촉지되는 것이 특징적이다. 안면신경마비는 거의 없으며 지금까지 보고된 예중 2예만이 adenoid cystic carcinoma와 병발되어 나타난것 외에는 모두 안면신경 침범은 없다고 하였다.

이 종양의 기원세포에 대하여는 아직 정립되어 있지 않다. Luna와 McKay등<sup>9)</sup>은 adenoid cystic carcinoma와 유사한 양상을 보여준다하여 intercalated duct의 상피세포에서 기인한다고 주장하였으며, Jao등<sup>6)</sup>은 전자현미경을 이용하여 secretory duct 세포와 유사점을 발견하고 duct에서 기인한다고 하였다. Nagao등<sup>11)</sup>은 종양세포들이 다양한 tonofilament와 secretory granule등을 갖고있으며 또한 desmosome으로 연결되어 있는 점등을 들어서 미

분화된 'reserve cell'에서 기인한다고 하였다. 이와 같이 intercalated duct의 상피세포, secretory duct의 상피세포 혹은 reserve cell등의 여러 기원이 가설로 나타나 있으나 아직 어느하나 정립된 정설은 없는 실정이다.

병리학적 특성은 균일한 기저세포(basal cell)들이 종양 전체를 차지하고 있으며 fibrous connective tissue에 의해서 여러 크기의 solid nest를 형성하고 이들은 canalicular, tubular 혹은 trabecular한 형태를 취하고 있다. 이런 형태에 따라 병리학적으로 basal cell type, tubular type, trabecular type, papillary type의 4가지 subtype으로 나누고 있다<sup>11)</sup>.

4가지 subtype 중 basal cell type이 가장 많으며 본 종양은 여러 크기의 종양세포 집단(cluster)이 있고 이 집단의 가장자리에 종양 세포들이 palisading row를 이루면서 배열되어 있는 것이 특징이다. 간혹 불완전한 평편상피세포 분화도 관찰되며 세포질은 창백하며 eosinophilic하게 보이고 핵들은 진한 chromatin으로 둥근 형태를 취하고 있기도 한다<sup>11)</sup>. 전자현미경으로 관찰하면 종양세포집단의 기저부의 세포배열은 불규칙하며 여러 종류의 기저막(basement membrane)을 관찰할수 있다. 또한 cytoplasmic interdigitation도 관찰된다. 세포강내에는 microvilli가 존재하며 여러 organelle들이 모두 관찰되며 핵 가장자리에는 chromatin이 농축되어 있는데 이는 organelle의 미분화때문인 것으로 보고있다. pleomorphic adenoma에서 볼수 있는 myoepithelial cell은 관찰되지 않는 것이 보통이다.

Tubular type은 기본 형태는 basal cell type이며 세포들이 tubular한 형태를 취하며 강내에는 PAS-positive mucin이 관찰되기도 하며 핵들은 bipolar로 배열되어 있다. Trabecular type은 종양세포들이 간질 내로 확산하여 trabecular모양을 형성하며 어떤 경우는 basal cell type과 감별이 힘든 경우도있다. 또한 간질에는 임파관이나 혈관의 확장이 관찰되기도 한다.

Papillary type은 가장 드문 형태로 종양세포들이 유두상 성장을 보이며 간혹 리본모양의 띠를 형성하기도 하는데 이들은 PAS-positive mucin을

갖고 있지 않으며 clear cell adenoma와 감별을 요하기도 한다<sup>4)</sup>. 이 형태학적 분류는 세포군의 형상에 따른 분류이며 광학현미경적으로 cystic formation, adenoid cystic pattern 및 stromal tissue에 elastosis가 있는 것등으로 분류하기도한다<sup>11)</sup>.

일반적으로 cystic formation하는 것이 가장 많아 Nagao등<sup>11)</sup>은 65%에서 cystic formation을 볼 수 있었다고 하였으며 이는 tubular type과 trabecular type에서 주로 많다고 하였다. Adenoid cystic change는 약 10%에서 발견되며 이는 확장된 강이 reticular fiber에 의해서 둘러싸여있는 것인데 보통은 여러가지 크기의 cyst가 다수 관찰된다. 이 현상이 바로 adenoid cystic carcinoma와 조직학적으로 감별이 어려운 점으로 되어있으며 그 감별은 mitotic figure나 invasive growth의 유무 등으로 하하고 있다. 이 현상은 또한 tubular type에서도 간혹 볼수 있다<sup>5)</sup>. Stromal tissue에 elastosis가 있는 것은 종양세포 집단을 싸고있는 elastic fiber의 network이 풍부한 것을 말하는 것으로 약 5%정도에서만 관찰된다<sup>11)</sup>.

저자의 경우 증례 1은 trabecular type으로 cystic formation이나 adenoid cystic change는 관찰되지 않았으며, 증례 2는 basal cell type으로 cystic formation이 다수 관찰되었다. 2예 모두에서 adenoid cystic change나 elastosis는 관찰되지 않았다.

본 종양의 치료는 표재엽(superficial lobe)에 존재한 예는 표재엽 절제술을, 심엽(deep lobe)에 존재할때는 이하선 전절제술을 시행한다. 다발성으로 나타나는 경우가 거의 없고 pleomorphic adenoma에서 볼수있는 pseudopods가 없기때문에 종양절제술만을 시행해도되나 임상적으로 pleomorphic adenoma나 adenoid cystic carcinoma와 감별이 어렵기 때문에 일반적으로는 pleomorphic adenoma에 준하는 수술이 권유되고 있다<sup>10)</sup>.

예후는 극히 양호하여 아직 재발을 보고한 예는 없으나 adenoid cystic carcinoma와 동반된 경우는 그에 따른 예후를 취한다.

이하선의 기저세포선종은 pleomorphic adenoma와는 달리 종양구성세포에서 myoepithelial cell을 볼수없는 아주 희귀한 isomorphic epithelial tumor이다.

병리학적으로 pleomorphic adenoma와 adenoid cystic carcinoma와 감별이 어려운 점이 문제이며, 임상 경과는 pleomorphic adenoma에 준하는 수술로 양호한 결과를 얻을 수 있다.

저자는 최근에 63세와 71세된 남자환자에서 좌측 이하선 심부엽에 발생한 기저세포선종 2예를 치험하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하였다.

#### REFERENCES

- 1) Canalis RF, Mok MW, Fishman SM, Hemenway WG: *Congenital basal cell adenoma of the submandibular gland. Arch Otolaryngol* 106: 284-286, 1980
- 2) Chaudhry et al: *Monomorphic adenomas of the parotid gland. Cancer* 52: 112-120, 1983
- 3) Christ TF, Crocker D: *Basal cell adenoma of minor salivary gland origin. Cancer* 30: 214-219, 1972
- 4) Goldman RL, Klein HZ: *Glycogen-rich adenoma of the parotid gland: An uncommon benign clear-cell tumor resembling certain clear-cell carcinomas of salivary origin. Cancer* 30: 749-754, 1972
- 5) Headington JT, Batsakis JG, Beals TF, Campbell TE, Simmons JL, Stone WD: *Membranous basal cell adenoma of parotid gland, dermal cylindromas and trichoepitheliomas: Comparative histochemistry and ultrastructure. Cancer* 39: 2460-2469, 1977
- 6) Jao W, Keh PC, Swerdlow MA: *Ultrastructure of the basal cell adenoma of parotid gland. Cancer* 37: 1322-1333, 1976

- 7) Kleinsasser O, Klein HJ: *Basalzelladenome Der Speicheldrusen. Arch Klin Exp Ohren-Nasen-Kehlkopfheilk* 189: 302-316, 1967
- 8) Krolls SO, Trodahl JN, Boyers RC : *Salivary gland lesions in children: A survey of 430 cases. Cancer* 30:459-469, 1972
- 9) Luna MA, Mackay B: *Basal cell adenoma of the parotid gland: Case report with ultrastructural observations. Cancer* 37:1615-1621, 1976
- 10) Min BH, Miller AS, Liefer C, Putong PB : *Basal cell adenoma of the parotid gland. Arch Otolaryngol* 99: 88-93, 1974
- 11) Nagao et al: *Histopathologic studies of basal cell adenoma of the parotid gland. Cancer* 50: 736-745, 1982
- 12) Thackray AC, Lucas RB: *Tumors of the major salivary glands In: Atlas of tumor pathology, Sec. Fasc. 10 Washington DC. Armed Forces Institute of Pathology* 1974