

이하선에 발생한 소관 선종

연세대학교 의과대학 외과학교실, 병리학교실*
신동우 · 정용윤 · 심정연* · 박정수

= Abstract =

Canalicular Adenoma of the Parotid Gland

Dong Woo Shin, M.D., Woung Youn Chung, M.D.,
Jeong Yun Shim, M.D.,* Cheong Soo Park, M.D.

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

Parotid canalicular adenoma is a benign neoplasm that is predominantly composed of branching and interconnecting cords of single or double rows of columnar epithelium in a very loose stroma. There has been considerable confusion in the literature concerning the terminology of canalicular adenoma. However, these days it has been newly-recognized as a discrete entity of the monomorphic adenoma group. Canalicular adenoma has a remarkable predilection for occurrence in the minor salivary glands such as the upper lip, in contrast with basal cell adenoma that occurs predominantly in major salivary glands such as the parotid gland.

We have experienced a case of canalicular adenoma of the parotid gland in a 65-year-old woman. The patient had a palpable mass on the preauricular area for the last 15 years and recently noticed a mild pain and discomfort on the mass. Neck ultrasonography showed a low echogenic mass of 1.0cm in diameter in the right parotid gland and a neck CT scan showed a well-enhanced rectangular-shaped mass. A superficial parotidectomy was performed for the lesion and the final pathologic diagnosis turned out to be "multifocal canalicular adenoma".

KEY WORDS : Canalicular adenoma · Parotid gland.

서 론

소관 선종(canalicular adenoma)은 윗입술에 있는 작은 침샘에 호발하는^{1,2)} 매우 드문 양성 종양으로서 대개 60대에 많이 생기며, 과거 단형선종(monomorphic adenoma)의 일종인 기저 세포 선종(basal cell adenoma)의 한 이형으로 분류되기도 하였다^{2,8)}. 대개 아주 느슨한 간질 조직 내에 한 줄 혹은 두줄로 나열된 원

주 상피가 가지를 내거나 서로 연결되는 구조의 특징적 조직 소견을 보인다⁴⁾. 이러한 특징에도 불구하고 과거 혼동된 분류가 된 것은 모든 침샘 종양의 1% 밖에 안 되는 희귀성과 같은 병변을 여러 학자가 서로 다른 견해에서 나름대로의 이름을 붙여 사용하였기 때문으로 보인다.

저자들은 새로운 분류에 의해 독립된 병명으로 정립된 소관 선종이 그 호발 부위인 윗입술이 아닌 우측 이하선에 발생한 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께

보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 65세, 여자.

주 소 : 우측 이하선부 종괴 및 통증.

과거력 및 가족력 : 7년전 골다공증으로 진단 받고 호르몬 제제를 복용 중이고, 5개월 전에는 고혈압으로 진단을 받아 항고혈압 제제를 복용중이며 그의 가족력상 특이 사항은 없었다.

현병력 : 약 15년전부터 우측 귀밑에 종괴가 있었으나, 별다른 불편함이 없어 그냥 지내다가 최근 10여일 전부터 통증이 동반되고, 그 크기가 서서히 자라는 것 같아 개인 방사선과 의원에서 경부 초음파 및 경부 컴퓨터 단층 촬영 후 본원 외과 외래로 내원하여 입원하였다.

이학적 소견 : 내원 당시 이학적 검사상 전신 상태는 양호하였고, 저작이나 발음시의 통증이나 운동 장애는 없었다. 이학적 검사상 우측 이하선 부위에 1.5×1.5 cm 크기의 등글고 단단한 종괴가 만져졌고, 약간의 압통이 동반되었다.

방사선학적 소견 : 경부 초음파 검사상 1.0×1.4cm 크기의 달걀 모양의 저초음파성 병변이 우측 이하선에서 관찰되었으며, 경부 컴퓨터단층촬영 검사에서는 1 cm 크기의 직방형으로 생긴 종괴가 조영제에 의해 농도가 짙게 나타나는 양상으로 우측 이하선에서 나타났고, 석회 침착도 관찰되었다(Fig. 1).



Fig. 1. Neck CT scan showing a 1.0cm sized well-enhancing rectangular shaped mass with focal calcification in right parotid gland.

수술 소견 : 수술은 Blair씨의 피부 절개술을 이용하여 우측 이하선 천엽 절제술을 시행하였다. 우측 이하선의 염증이거나 주변에 유착의 소견은 없었고 이복근 바로 아래 림프절 하나가 종대 되어 있었으며, 크기는 약 0.7cm 정도였다. 우측 이하선 천엽의 미부에서 비교적 경계가 명확한 종괴가 관찰되었다. 수술 검체를 절개하였을 때 이하선 내에 국한된 1.0cm 크기의 피막형성이 잘 되어있고 흰색의 균질성 종괴가 관찰되었으며, 동결 절편 조직 검사상 '양성 선종'으로 보고되었다. 수술 동안 안면 신경의 다섯 분지는 모두 확인되었고, 안전하게 보존되었다.

병리학적 소견 : 조직은 우측 이하선의 일부분으로서 표면은 섬유성 피막으로 싸여 있고 여러 절단면에서 an encapsulated whitish homogeneous round solid mass(0.8×0.8cm)가 이하선 실질(parotid parenchyma)내에 국한되어 있었다. 동결 절편 검사에서는 양성, 기저 세포 선종으로 보고되었으나 최종 병리학적 진단은 다발 병소성 소관 선종(canalicular adenoma,

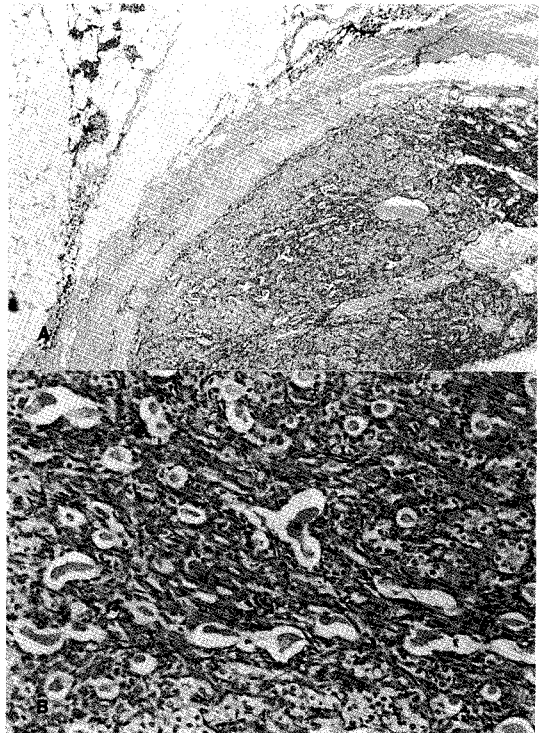


Fig. 2. Microscopic findings(H-E stain. A : ×40, B : ×200) : A well-circumscribed, encapsulated nodule composed of branching and interconnecting cords of double rows of columnar epithelium(A), cord like structures the appear as isolated tubules(B).

multifocal)으로서, 절제 변연(resection margin)에는 종양이 없었고, 우측 이복근하 림프절(right subdigastic node) 네 개는 모두 단순 림프절 비대로 보고되었다(Fig. 2. A and B).

수술후 경과 : 수술후 경과는 양호하였고, 안면 신경의 마비나 기능 저하의 증상 없이 수술후 3일째 퇴원하였으며 퇴원 2개월인 현재 특별한 이상 없이 외래에서 추적관찰 중이다.

고 찰

소관 선종(canalicular adenoma)은 과거에 단형 선종(monomorphic adenoma)의 일종인 기저 세포 선종(basal cell adenoma)의 한 이형으로 분류되었다^{2,6)}. 소관 선종이라는 명명의 기원은 기저 세포 선종이나 단형 선종보다도 오히려 더 오래되었는데, 1953년 Bauer와 Bauer⁹⁾는 “프랑스 병리학자들이 이하선의 포도상 선종(acinous adenoma of the parotid)과 관상피(ductal epithelium)에서 기원하는 소관 선종을 구분하여 사용한다”고 하며 소관 선종의 한 예를 발표한 바 있다. 이에 앞서 McFarland¹⁰⁾는 여러 타액선 종양군을 소관 선종으로 발표하였는데, 현재의 개념보다 광범위한 것이어서, 이 중 여러 예에서 재발을 하였다. 1947년 Ash¹¹⁾는 canalicular form of mixed tumor라는 용어를 사용하여, 포도상(acinar manner)과는 명백하게 다른 관상 배열(tubular arrangement)을 하는 내강(lumina)이 있는 세포들의 기둥(columns of cells)으로 이루어진다고 하였다. Bhaskar와 Weinmann³⁾은 1955년 현재의 정의를 갖는 정확한 의미의 소관 선종을 처음으로 소개하였으며 1972년 WHO의 Histological Typing of Salivary Gland Tumors¹²⁾에서 소관 선종이 하나의 분류로 등재되지는 못했지만 많은 학자들에 의해 단형 선종의 한 특유한 형태로 받아들여지기 시작하였고, 1980년 Chen과 Miller³⁾는 소관 선종에 대한 전자현미경을 이용한 미세 구조적 특징을 보고하였다. 1983년 Gardner와 Daley⁶⁾는 타액선 종양에 있어서 단형 선종, 기저 세포 선종, 소관 선종의 혼동된 명칭 사용을 규정하는 글을 발표하였는데 여기서 소관 선종은 기저 세포 선종의 한 변형이 아니고, 다른 별개의 존재로 규명하였다. 1984년 Daley 등⁴⁾은 73예의 소관 선종과 39예의 기저 세포 선종의 비교 분석을 통해 소관 선종

이 기저 세포 선종과는 별개의 병명임을 주장하였으며, 1992년 Seifert와 Sobin에 의해 발표된 WHO histological classification of salivary gland tumors¹⁴⁾에서 마침내 독립된 병명으로 기재되었다.

소관 선종은 minor salivary glands, 특히 윗입술에 호발하며, 거의 대부분에 50세 이후에 발생하고, 50대 이하의 발생은 극히 드물며, 미육군 병리 연구소 자료¹⁵⁾에서는 1.8 : 1로 여성에서 더 많이 발생하는 것으로 보고하였다. 임상적 양상은 매우 느리게 자라며, 종괴로 인한 증상이나 통증 등은 거의 없어 발생에서 진단까지 수개월에서 수년까지 다양한 양상을 보이는 것이 대부분이다. 육안 소견의 특징은 경계가 명확하고, 밝은 노랑 색에서 짙은 갈색으로 대개 3cm 이하의 단일 결절이 대부분이지만 22%에서 다발성으로 나타나기도 한다³⁾. 본 증례는 특이하게도 호발 부위인 윗입술이 아닌 우측 이하선에 발생하였지만 문헌 고찰에서와 같이 15년간 만저지던 종괴를 최근 발생한 압통을 주스로 내원한 아주 느린 성장 속도를 보이는 종양으로서 다발성이었다.

주된 병변 주변에서 작은 microadenomas로서 발견되는 이러한 다발성(multifocality)에 대해 아직 명확한 원인은 모르나 어디까지나 양성의 성격을 갖는 악성의 변화가 거의 없다는 것이 중요하다¹⁶⁾. 대개 피막형성이 잘 되어 있고, 단면은 균질성이고, 다수의 작은 낭종들과 점액성 교질을 보인다¹³⁾. 현미경 소견은 경계가 명확한 피막성 결절로서 다발성 종양은 현미경 소견에서만 밝혀지는 경우가 많다. 전자 현미경 소견상 소관 선종은 인접한 세포간에 소량의 desmosome과 최소한의 cytoplasmic filaments 만을 갖는다¹³⁾. 이에 반해 기저 세포 선종의 경우 많은 양의 desmosome과 여러 bundle의 tonofilaments에 의해 연결을 지닌다. 또한 소관 선종이 단일층의 불분명한 기저층(basal lamina)을 지니는 것에 반해 기저 선종은 여러 층의 기저층을 갖는 특징이 서로 다르다. 기저 세포 선종의 경우 여러 가지 성장 패턴을 보이는 것과 달리 소관 선종은 모든 경우에서 일정한 양상의 모습을 보인다¹³⁾. 앞의 서론에서 정의한 바와 같이 기본적인 구조는 느슨한 간질 조직 내에 두줄의 원주 상피 세포들이 가지를 내거나 서로 연결되는 구조를 가짐으로써 마주 대하는 세포들이 서로 갈라지면서 소관을 형성하게 된다. 이러한 구조가 반복되면서 염주알 모양을 만들고(beading), 소관이 좁 더

넓게 갈라지면 작은 낭종을 형성하기도 하며, 경우에 따라서는 육안적으로도 보이는 낭종을 만들기도 한다. 세포질은 amphophilic 내지 eosinophilic하며, 핵은 둥글거나 타원형이며, 일정한 모양으로 basophilic chromatin을 지닌다. Mitotic figure는 거의 없거나 드물다. 간질은 매우 느슨하고 섬유성 교질로 이뤄지며, 섬유아세포들은 거의 없다. 기저 세포 선종에서는 혈관 분포가 거의 없는 것과 달리 풍부한 혈관 세포들이 있는 것이 특징이며¹³⁾ 소관 선종의 면역화학 염색에 대한 연구는 아직 부족하여 잘 알려져 있지 않다¹⁷⁾.

소관 선종은 기저 세포 선종이나 악성인 선양 낭종성 암(adenoid cystic carcinoma)과의 구분이 중요하다. 기저 세포 선종의 tubulotrabeular type과 혼동하기 쉬운데 이 경우 소관 선종에서와 같은 가지치기나 염주알의 형성이 없다. 선양 낭종성 암에서는 cribriform-tubular pattern과의 구분이 중요하고, 파괴적인 침투양상의 선양 낭종성 암과는 연결이 많은 상피세포가 일렬로 늘어 서 있는 구조의 유사성을 제외하고는 쉽게 구분이 된다. 그러나 작은 선양 낭종성 암도 경계가 명확한 경우가 있고, 소관 선종도 초기에는 침투성 양상을 보이므로, 그 구분이 중요하다고 할 수 있다. 기저 세포 선종과의 구분은 같은 양성이라는 점에서 치료적 의의가 적으나 악성도가 심한 선양 낭종성 암과의 구분은 치료와 예후 면에서 그 구분이 매우 중요하다. 소관 선종은 재발이 거의 없고, 종양의 국소 절제만으로도 훌륭한 치료 효과를 얻을 수 있다.

결 론

소관 선종은 새로이 정립된 양성 타액선 종양의 하나로써 같은 양성인 기저 세포 종양과 임상적 감별의 의의는 적다고 할 수 있으나 악성인 선양 낭종성 암 등과의 감별은 치료와 예후 면에서 그 임상적 감별이 매우 중요하다.

저자들은 새로운 분류에 의해 독립된 병명으로 정립된 소관 선종이 그 호발 부위인 윗입술이 아닌 우측 이하선에 발생한 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하였다.

References

1) Christ TF, Crocker D : *Basal cell adenoma of minor*

salivary gland origin. Cancer. 1972 ; 30 : 214-219
 2) Nelson JF, Jacoway JR : *Monomorphic adenoma(canalicular type). Cancer. 1973 ; 31 : 1511-1513*
 3) Bhaskar SN, Weinmann JP : *Tumors of the minor salivary glands. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1955 ; 8 : 1278-1297*
 4) Daley TD, Gardner DG, Smout MS : *Canalicular adenoma : Not a basal cell adenoma. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1984 ; 57 : 181-188*
 5) Daley TD : *The canalicular adenoma : Considerations on differential diagnosis and treatment. J Oral Maxillofac Surg. 1984 ; 42 : 728-730*
 6) Gardner DG, Daley TD : *The use of the terms monomorphic adenoma, basal cell adenoma and canalicular adenoma as applied to salivary gland tumors. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1983 ; 56 : 608-615*
 7) Batsakis JG, Brannon RB, Sciubba JJ : *Monomorphic adenomas of major salivary glands : A histologic study of 96 tumours. Clin Otolaryngol. 1981 ; 6 : 129-143*
 8) Fantasia JE, Neville BW : *Basal cell adenomas of the minor salivary glands. A clinicopathologic study of seventeen new cases and a review of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1980 ; 50 : 433-440*
 9) Bauer WH, Bauer JD : *Classification of glandular tumors of salivary glands. Arch Pathol. 1953 ; 55 : 328-348*
 10) McFarland J : *The histopathologic prognosis of salivary gland mixed tumors. Am J Med Sci. 1942 ; 203 : 502-519*
 11) Ash JE : *Mixed tumors of the salivary gland type : Preliminary report. Am J orthod Oral Surg. 1947 ; 33 : 522-531*
 12) Thackray AC, Sobin LH : *Histological typing of salivary gland tumours. International histological classification of tumors. No. 7. Geneva : World Health Organization, 1972 : 22*
 13) Chen S-Y, Miller AS : *Canalicular adenoma of the upper lip. An electron microscopic study. Cancer. 1980 ; 46 : 552-556*
 14) Seifert G, Sobin LH : *Histological typing of salivary gland tumors. World Health Organization international histological classification of Tumours., 2nd ed., New York : Springer-Verlag 1991*
 15) Thackray AC, Lucas RB : *Tumors of the major salivary glands. Atlas of Tumor Pathology. 2nd Series, Fascicle 10. Washington, D.C. : Armed Forces Institute of*

Pathology, 1974

- 16) Nelson ZI, Newman L, Loukota RA, Williams DM
: *Bilateral multifocal canalicular adenomas of buccal
minor salivary glands : A case report. Br J of Oral &
Maxillofac Surg. 1995 ; 33 : 299-301*
- 17) Guccion JG, Redman RS : *Canalicular adenoma of
the buccal mucosa. An ultrastructural and histochemi-
cal study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1986 ;
61 : 173-178*