

이하선 상피-근상피 암종 1예

순천향대학교 의과대학 구미병원 이비인후과학교실

강기훈 · 김장묵 · 송태현 · 차영진

=Abstract=

A Case of Epithelial-Myoepithelial Carcinoma of the Parotid Gland

Ki Hoon Kang, MD, Chang Muk Kim, MD, Tae Hyun Song, MD,
Young Jin Cha, MD

*Department of Otolaryngology, College of Medicine,
Soonchunhyang University, Gumi, Korea*

Epithelial-myoepithelial carcinoma(EMC) is a rare low grade malignant salivary gland neoplasm that most commonly occurs in the parotid gland but can also arise in minor salivary glands. It is a distinct neoplasm characterized by tubular and solid growth patterns and a dual cell population including an inner larger of cuboidal to columnar epithelial cells which are peripherally bounded by a layer of myoepithelial cells with distinctly clear cytoplasm.

The clinical course is characterized by a high incidence of local recurrence and not infrequent distant metastasis. The differential diagnosis included acinic cell tumor, adenoid cystic carcinoma, mucoepidermoid carcinoma, sebaceous carcinoma and pleomorphic adenoma. We report a case of EMC of left parotid gland in a 55-year-old woman.

Key Words : Parotid gland · Epithelial-myoepithelial carcinoma

교신저자 : 송태현(Tae Hyun Song, MD)

730-030 경북 구미시 공단동 250번지 순천향대학교 의과대학 구미병원 이비인후과학교실

Tel : (054) 463-7151(501) Fax : (054) 461-5989 E-mail : thsong@schgm.co.kr

I. 서 론

1991년 세계보건기구(WHO)에 의해 공식적으로 분류된¹⁾ 상피-근상피 암종은 조직학적으로 두 가지 세포의 다양한 비율로 형성되는데 내측의 상피세포와 외측의 투명한 근상피세포의 2열 구조로 구성되어 있는 것이 특징이다.^{2,3)} 전체 타액선 종양의 1%정도를 차지하고,^{2,4)} 50대에서 70대 사이의 여성에서 호발하는 저급 악성 종양(low-grade malignancy)으로 분류되지만 다양한 임상적 양상과 높은 재발률 및 사망률이 보고되기도 하였다.^{3,4)} 이에 저자들은 56세 여자환자의 좌측 이하선에 발생한 상피-근상피 암종을 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증 례

56세 여자 환자가 약 3년전부터 서서히 커지는 좌측 이하부의 종물을 주소로 내원하였다. 과거력 및 가족력에서 특이사항 없었고, 진찰소견상 좌측 이하부위에서 약간의 압통이

동반된 직경 약 2cm의 가동성인 종물이 촉진되었으며, 안면신경마비나 경부 림프절은 촉진되지 않았다. 세침흡입세포검사에서는 비특이적인 결과가 나왔다. 경부 전산화 단층촬영 결과 좌측 이하선의 심부에 1.5 × 2.0cm 크기의 소엽성의, 내부에서 낭성 변화 및 약간의 조영의 증강이 있는 연조직 음영의 종물이 관찰되었지만 주위조직으로의 침윤이나 경부 림프절 전이는 발견되지 않았다(Fig. 1). 전신마취하에서 이하선 절제술을 시행하였다. 종물은 이하선의 침부와 심부에서 유래되는 양상이었고 안면신경의 하악분지와 유착으로 박리하는 과정에서 어려움은 있었으나 안면신경을 보존하면서 이하선의 정상조직과 함께 종물을 제거하였다. 술 후 [이:] 발생시 약간의 구순 비대칭 소견이 있었지만 점차 호전되어 별다른 합병증 없이 술후 7일째 퇴원하였다. 절제된 종괴는 네 개의 불규칙한 모양의 회백색의 고형성 종괴로 절단면에서 부분적으로 점액양 소견을 보였다. 광학 현미경 소견상 종양은 주위의 정상 타액선으로 침윤되는 양상을 보였다(Fig. 2). 종양세포의 대부분은 2층의 관상구



Fig. 1. Preoperative axial enhanced CT scan demonstrates a mass(arrow) in left parotid gland showing slight enhancement at periphery and cystic change at central region.

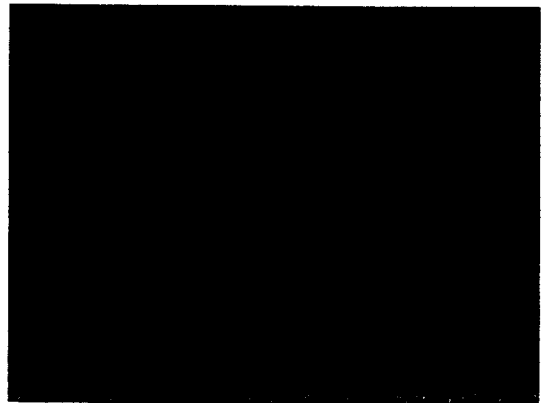


Fig. 2. Photomicrograph showing infiltrative growth pattern of tumor cells into surrounding normal salivary gland(H&E. ×100).

조를 이루고 있었으며, 내측은 편평한 관내피 세포로 구성되고 외측은 좀 더 큰 투명세포로 구성되어 있었으며, 내강내에는 간혹 호산구성 물질이 차 있었다(Fig. 3). 면역 조직화학 염색에서 내측세포는 carcinoembryonic antigen과 cytokeratine에 양성반응을 보였고 외측 투명 세포도 S-100 단백질과 액틴(actin)에 양성반응을 나타내었다(Fig. 4).

III. 고 찰

상피-근상피 암종은 드문 저급 악성 타액선 종양으로 내측의 관을 형성하는 상피세포와 그것을 둘러싸고 있는 외측의 투명한 근상피 세포의 2열구조로 되어있는 것이 특징이다.^{5)~8)} 1972년 Donath 등⁹⁾이 처음으로 8예를 보고하기 전에는 glycogen rich adenoma, clear cell myoepithelioma, tubular solid adenoma, clear cell carcinoma, adenomyoepithelioma 등의 다양한 이름으로 불리우기도 하였다.¹⁰⁾¹¹⁾ 1972년 세계보건기구에서 투명 세포 단형성

선종(clear cell monomorphic adenoma)으로 설명된 적은 있으나¹²⁾ 정식분류는 1991년에 이루어졌다.¹⁾

주로 50대에서 70대 사이의 여성에서 발병하는 것으로 알려져 있으며,⁵⁾¹³⁾ 이하선에서 호 발하는데 악하선과 소타액선 및 후두에서의 발생보고가 있고,¹³⁾¹⁴⁾ 드물게 폐에서 발생한 예도 있었다.⁸⁾

증상은 발생부위에 따라 다양한데 타액선의 경우 다른 종양과 마찬가지로 무통성 종괴로 이하선에 주로 나타나고, 수개월에 걸쳐 천천히 커지거나 정지 상태로 있다가 갑자기 커지는 양상을 보이기도 하지만,¹⁵⁾ 드물게는 통증과 안면신경마비를 동반하기도 한다.¹⁶⁾

상피-근상피 암종은 조직학적인 형태에 따라 분류를 하고 있으나 저자마다 차이가 있어 일치된 견해는 없다. 1993년에 Fonseca와 Soares¹⁷⁾는 tubular-cribriform형과 solid형으로 분류하였으며, anti-proliferating cell nuclear antigen PC10 antibody를 이용한 면역 조직화학 검사로 투명한 근상피 세포의 증식이 활



Fig. 3. Photomicrograph showing characteristic double-layered duck-like structures consisting of an inner layer of duct-lining cells and outer layer of large clear cells, occasionally intraluminal eosinophilic materials(H&E. ×200).



Fig. 4. Immunohistochemical studies. A: Carcinoembryonic antigen, B: S-100 protein.

발한 것을 밝혀 이 세포가 많은 부분을 차지하는 solid형이 더 악성이라고 하였다. 본 증례의 경우는 tubular-cribriform형과 solid형이 부분적으로 혼재된 양상이었다.

Toida 등¹³⁾에 의하면 근액틴(muscle actin)은 근상피세포의 표식자이며, 광범위한 투명세포의 증식을 보이는 암종으로부터 상피-근상피 암종의 solid clear cell 변종을 감별할 수 있다고 하였다. 본 증례의 면역 조직 화학검사에서도 S-100단백과 근액틴에 양성 반응을 보여 암종내에 근상피 세포가 존재함을 확인할 수 있었다.

감별해야할 질환으로는 소포세포암(acini cell carcinoma), 선양낭성암종(adenoid cystic carcinoma), 점막상피암(mucoepidermoid carcinoma), 피지암(sebaceous carcinoma), 다형성 선종(pleomorphic adenoma) 등이 있다.¹⁸⁾¹⁹⁾ 치료는 수술적 적출법이며, 종양이 없는 정상 조직을 포함하여 적출해야 하고, 안면신경의 침범이 있는 경우에는 안면신경도 같이 제거한다.²⁰⁾ 술 후 방사선치료가 효과적이라는 보고도 있기는 하나,¹⁸⁾ 아직 명확하지는 않다. Cho 등³⁾은 상피-근상피 암종의 특징적인 양상으로 진단 후 재발 및 전이까지 기간이 길어 평균적으로 전자는 5년, 후자는 15년이라고 하였고, 33년간 26예에서 50%의 재발율과 25%의 전이율을 보고하였다. 예후에 관해서 종양의 크기나 조직학적 형태가 관련된다는 보고가 있으나,⁴⁾ Cho 등³⁾은 조직학적 양상은 예후와는 무관하며 DNA aneuploidy가 있는 종양에서 결과가 좋지 않아 중요한 예후 인자가 된다고 하였다. 결론적으로 상피-근상피 암종은 타액선, 특히 이하선에 호발하는 매우 드문 저급 악성 종양으로 비교적 국소 재발을 잘 하는 것으로 알려져 있으며, 저자들은 56세 여

자 환자에서 경험하였고 현재 외래 추적 관찰 중이다.

중심단어 : 이하선 · 상피-근상피 암종

References

1. Seifert G, Sobin LH : *Epithelial-myoepithelial carcinoma. in World Health Organization International Histological Classification of Tumours: Histological Typing of Salivary Gland Tumours. 2nd edition. Berlin, Springer-Verlag: 1991. p.23-4*
2. Batsakis JG, EI-Naggar AK, Luna MA : *Epithelial-myoepithelial carcinoma of salivary glands. Ann Otol Rhinol Laryngol 1992; 101: 540-2*
3. Cho KJ, El-Naggar AK, Ordonez NG, Luna MA, Austin J, Batsakis JG : *Epithelial-myoepithelial carcinoma of salivary glands. A clinicopathologic, DNA flowcytometric, and immunohistochemical study of Ki-67 and HER-2/neu oncogene. Am J clin Pathol 1995; 103: 432-7*
4. Fonseca I, Soares J : *Epithelial-myoepithelial of the salivary glands: A study of 22 cases. Virchows Arch A Pathol Anat Histopathol 1993; 444: 389-96*
5. Thiebault S, Moras A, Brun I, Hamel S, Colson A, Rozan S et al. : *Epithelial-myoepithelial carcinoma of the salivary glands: report of a case. Ann Pathol 1999; 19: 30-2*
6. Simpson RH, Clarke TJ, Sarsfiels PT : *Epithelial-myoepithelial carcinoma of parotid glands. J Clin Pathol 1991; 44: 419-23*
7. Morinaga S, Hashimoto S, Tezuka F : *Epithelial-myoepithelial carcinoma of the parotid gland in a child. Acta Pathol Jpn 1992; 24:*

8. Wilson RW, Moran CA : *Epithelial-myoeipithelial carcinoma of the lung: Immunohistochemical and ultrastructural observations and review of the literature.* HUM PATHOL 1997; 28: 631-5
9. Donath K, Seifert G, Schmitz R : *Diagnosis and ultrastructure of the tubular carcinoma of salivary gland ducts. Epithelial-myoeipithelial carcinoma of the intercalated ducts.* Virchows Arch(Pathol Anat) 1972; 356: 16-31
10. 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 1972; 30: 749-54
11. Saksela E, Tarkkanen J, Wartiovaara J : *Parotid clear-cell adenoma of possible myoeipithelial origin.* Cancer 1972; 30: 742-8
12. Thackray AC, Sobin LH : *Histological typing of salivary gland tumours.* Geneva, Switzerland: World Health Organization, 1972.
13. Toida M, Shimokawa K : *Epithelial-myoeipithelial carcinoma of the parotid gland: Report of a case.* J Oral Maxillofac Surg 1995; 53: 476-80
14. El-Naggar AK, Batsakis JG, Luna MA : *Epithelial-myoeipithelial carcinoma of salivary glands.* Ann Otol Rhinol Laryngol 1992; 101: 540-2
15. Stiernberg CM, Batsakis JG, Bailey BJ : *Epithelial-myoeipithelial carcinoma of the parotid gland.* Otolaryngol Head and Neck Surg 1986; 94: 240-2
16. Rhee JS, Jung HW, Jinn TH, Suh JH : *A case of parotid epithelial-myoeipithelial carcinoma of intercalated ducts invading external auditory canal and postauricular skin.* Korean J Otolaryngol 1995; 38: 1801-5
17. Fonseca I, Soares J : *Proliferating cell nuclear antigen immunohistochemistry in epithelial-myoeipithelial carcinoma of the salivary glands.* Arch Pathol Lab Med 1993; 117: 993-5
18. Corio RL, Sciubba JJ, Brannon RB : *Epithelial-myoeipithelial carcinoma of intercalated duct origin. A clinicopathologic and ultrastructural assessment of sixteen cases.* Oral Surg 1982; 53: 280-7
19. Lampe H, Ruby RR, Greenway RE : *Epithelial-myoeipithelial carcinoma of salivary glands.* J Otolaryngol 1984; 13: 247-51
20. Marrow TA, Chun T, Mirani N : *Epithelial-myoeipithelial carcinoma of the salivary gland.* Ear Nose & Throat Journal 1990; 69: 646-8