

## 이하선의 다발성 소관선종(Canalicular Adenoma) 1예

연세대학교 의과대학 외과학교실, 병리학교실,\* 포천중문의과대학교 외과학교실\*\*

장항석\*\* · 정웅운 · 기정혜\* · 박정수

= Abstract =

### A Case of Multifocal Canalicular Adenoma of Parotid Gland

Hang-Seok Chang, M.D.,\*\* Woong Youn Chung, M.D.,  
Jung Hae Ki, M.D.,\* Cheong Soo Park, M.D.

Department of Surgery and Pathology,\* Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea  
Department of Surgery,\*\* Pochon CHA University College of Medicine, Bundang, Korea

Canalicular adenoma is a uncommon benign salivary gland tumor and it most frequently involves minor salivary gland of upper lip. It rarely occurs in parotid gland. The canalicular tumor of parotid gland can be manifestes clinically and pathologically as a multifocal lesion, which is not generally seen with other intraoral salivary gland tumors.

Recently, we experienced a case of multifocal canalicular adenoma occurred on parotid gland in a 65-year-old woman and report it to support the view that canalicular adenoma occur rarely in parotid gland, and is recognizable entities.

KEY WORDS : Canalicular adenoma · Parotid gland.

소관선종(canalicular adenoma)은 매우 드문 질환으로서 주로 구강내 타액선에서 발생하는 양성 타액선 종양이다<sup>1,2)</sup>. 흔히 이환되는 부위는 윗입술이며 대략 70% 가량의 빈도를 보이고 구강점막과 구개 순으로 높은 빈도를 보이는 것으로 알려져 있다<sup>3,5)</sup>. 이 질환은 주로 60대 이후의 고연령층에서 발견되고 여성에서 약간 빈도가 높은 것으로 알려져 있다<sup>6,7)</sup>. 현재까지 전세계적으로 보고된 소관선종은 주로 구강내의 타액선이나 윗입술에 발생된 예였으나 이하선 등 주요 타액선에서 발생한 예는 아직 보고된 바 없다. 저자들은 최근 이하선의 다발성 소관선종을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증 례

65세 여자가 우측 후이개부에 약 15년 전부터 만져진 종

교신저자 : 박정수, 120-752 서울 서대문구 신촌동 134번지  
연세대학교 의과대학 외과학교실  
전화 : (02) 361-5546 · 전송 : (02) 313-8289  
E-mail : y Surg@yumc.yonsei.ac.kr

괴를 주소로 내원하였다. 내원 약 10일 전부터 종괴부위의 둔한 동통이 발생하였고 근처 병원에서 우측 이하선 종양으로 진단되었다. 고혈압으로 치료중이었으며 골다공증으로 호르몬 치료를 받고있는 것 외에 특이 질환의 과거력은 없었으며, 가족력상 특이사항 없었다. 이학적 소견상 우측 후이개부에 직경 약 1cm 가량의 딱딱하고 경계가 분명한 종괴가 만져졌으며 압통을 호소하였으나 주위 조직과 고착된 소견은 없었다.

수술전 시행한 말초 혈액검사, 혈청 생화학 검사, 혈액응고 검사상 특이소견 없었다.

초음파 검사상 약 1×1.4cm 크기의 저에코 음영의 종괴가 우측 이하선에서 관찰되었고, 경부 전산화단층 촬영상 1.5×1.5cm 크기의 고음영의 종괴가 우측 이하선의 후하방 부위에 존재하였으나(Fig. 1), 이하선 실질내 다른 이상 소견은 없었으며, 림프절 비대의 소견도 없었다.

수술은 우측 이하선 천엽절제술과 이복근하 림프절 조직 생검을 시행하였다. 이복근하 림프절은 직경 약 0.7cm로 정상적인 모양을 보였고 동결절편 검사상 양성으로 보고되

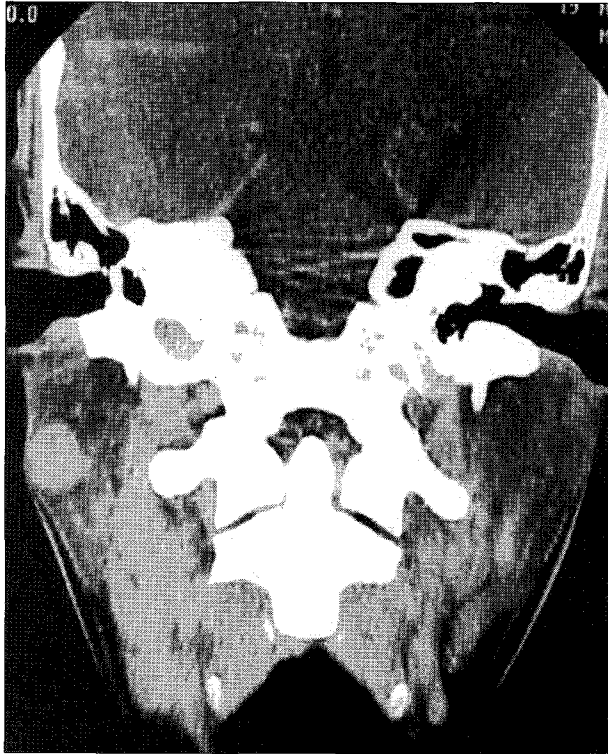


Fig. 1. CT scan showing a about 1.5×1.5cm sized, round, homogenous and highly attenuated mass on the right parotid gland.

었다. 절제된 우측 이하선 천엽을 절개하였을 때 직경 1.3 cm 가량의 피막형성이 좋고 균일한 유백색의 종괴가 관찰되었다. 수술중 안면신경분지는 모두 보존되었다.

병리학적 소견상 가장 큰 종괴는 이하선 내부에 실질과 명확한 경계를 보이는 직경 1.3cm 가량의 종괴로 섬유성 조직으로 피막이 형성되어 있고 피막의 침범 소견은 보이지 않았다. 그의 실질내에 다발성의 작은 병소들이 관찰되었고 이들 종괴들은 결체조직 내에 정방형 혹은 장방형의 세포로 이루어진 소관의 형태를 취하고 있어 소관 선종에 합당한 소견을 보였다(Fig. 2-A and B). 수술후 3일째 부작용 없이 퇴원하였으며, 현재 수술후 31개월째 재발의 소견없이 유지 중이다.

## 고 찰

과거에는 다형선종(pleomorphic adenoma)이 아닌 양성 타액선 종양을 단형선종(monomorphic adenoma)으로 분류하였으며, 소관선종과 다른 형태의 단형선종은 구분이 어려웠다<sup>6-9)</sup>. 이후 단형선종을 세분하여 소관형(canalicular type)과 기저세포형(basal cell type)으로 분류하려는 시도들도 있었지만<sup>3)10)11)</sup>, 1980년대 초반에 이르러 소관선종으로 독립된 분류가 가능하였다<sup>12)13)</sup>.

소관 선종은 주로 윗입술과 구강점막의 타액선에 호발하고 주병소 주변의 타액선에도 다발성 병소를 나타내며 대부

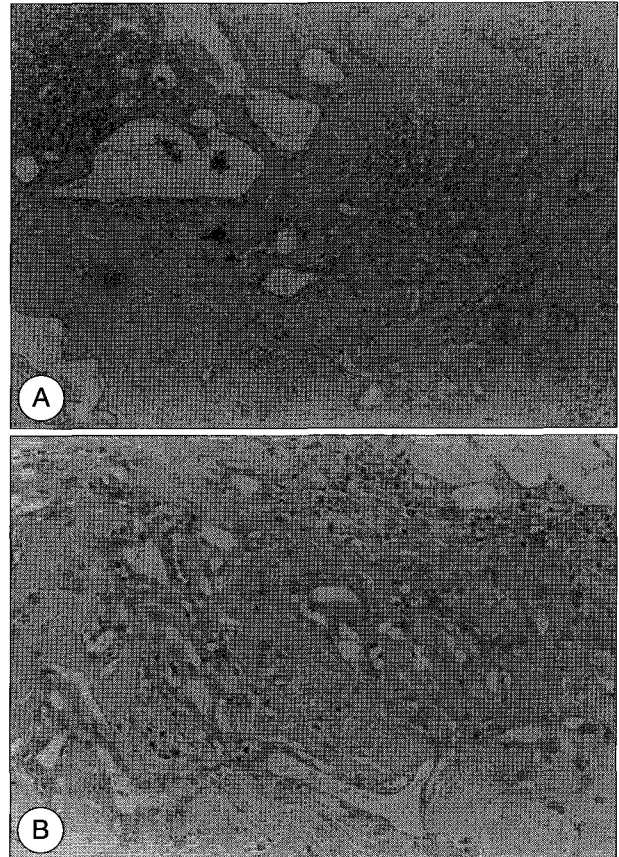


Fig. 2. A : The tumor showing canalicular structures which are composed of epithelial cells forming branching and interconnecting cord in the relatively fibrotic stroma(X40). B : The highly magnified photomicrography showing that the cord of epithelium are composed of rows of columnar cells(X200).

분은 미세병소로서 임상적으로 발현되는 예는 드물다. 여러 보고에서도 나타난 바와 같이 대략 20% 전후에서 주 병소 주위에 피막형성이 좋은 미세병소가 현미경적 검사로 발견되는 것으로 알려져 있다<sup>10)13)</sup>. 이렇게 다발성 병변의 빈도가 높음에도 불구하고 재발은 매우 드문 것으로 알려져 있는데, 원인은 명확히 규명되지 않았지만 이 질환의 생물학적 특징이 매우 느린 성장속도를 보이고, 병소가 아직 임상적으로 나타나지 않는 미세병소일 경우 발생의 초기단계에서 성장이 지연되어 매우 긴 잠복기간이 필요한 때문인 것으로 주장되고 있다<sup>14)</sup>. 실제로 수술 후 4년에서 12년 이후에 주 병소 주변의 점막이나 타액선에서 재발한 예를 관찰한 보고들도 있어 이 가설을 뒷받침하는 근거가 되고 있다<sup>8)13)15)</sup>. 소관선종의 미세병소가 어느 정도 충분한 시간이 경과되었을 경우 성장속도가 증진되면서 임상적으로 발현되는 또 다른 성장 형태를 보이는 것으로 알려져 있지만 이러한 생물학적 특징의 원인 역시 잘 알려져 있지 않다. 본 증례에서 15년 동안 거의 성장하지 않던 이하선의 소관선종이 성장속도가 빨라지면서 주위조직을 압박하여 동통과 압통을 유발하기 시작한 것으로 생각된다.

대부분의 타액선 종양과 마찬가지로 소관선종의 원인은 잘 알려져 있지 않다. 또한 이 질환이 특징적인 다발성 형태를 보이고 윗입술에 호발하는 등의 생물학적 특징에 대해서도 원인 규명이 되지 않은 상태이다. 어떤 암유발인자에 의한 "field cancerization theory"와 발생초기의 다발성 이형성 등이 원인으로 지목되고 있지만 아직 논란의 여지가 많다<sup>14-16)</sup>. 앞으로 분자생물학적 연구기법을 활용한 clonality 검사와 다발성 병소에 대한 microdissection 기법을 이용한 연구를 통하여 원인과 질환의 분자생물학적 특징을 규명할 수 있으리라 생각되지만 아직 활용도는 높지 않은 실정이다. 소관선종의 치료 역시 정립되어 있지 않은 실정이나 다발성을 보이는 특징이나 오랜 기간 후에도 재발하는 질환의 특징을 고려할 때 처음 수술에서 광범위한 절제를 통해 안전한 변연을 확보하는 것이 중요하며, 성공적인 수술적 치료 후에도 치밀한 추적관찰을 통해 재발 병소를 조기진단하는 것이 무엇보다 중요하다 하겠다.

저자들이 조사한 바에 의하면 본 증례와 같이 소관선종이 이하선에 발생한 경우는 보고된 바가 없다. 본 증례는 성장특징과 병리조직학적 형태에 있어 전형적인 소관선종으로서 발생부위의 희소성을 고려할 때 주목할 만한 예로 생각된다. 이에 저자들은 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## References

- 1) Spiro RH : *Salivary neoplasm : overview of a 35-year experience with 2,807 patients. Head Neck Surg.* 1986 ; 8 : 177-184
- 2) Chaudhry AP, Vickers RA, Gorlin RJ : *Intraoral minor salivary gland tumors : an analysis of 1,414 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1961 ; 14 : 1194-1226
- 3) Nelson JF, Jacoway JR : *Monomorphic adenoma(canalicular type) : report of 29 cases. Cancer.* 1973 ; 31 : 1511-1513
- 4) Chaudhy AP, Labay GR, Yamane GM, Jacobs MS, Cutler LS, Watkins KV : *Clinico-pathologic and histogenetic study of 189 intraoral minor salivary gland tumors. J Oral Med.* 1984 ; 39 : 58-78
- 5) Daley TD, Gardner DG, Smout MS : *Canalicular adenoma : not a basal cell adenoma. Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1984 ; 57 : 181-188
- 6) Eveson JW, Cawson RA : *Tumors of minor(oropharyngeal) salivary glands : a demographic study of 336 cases. J Oral Pathol.* 1985 ; 14 : 500-509
- 7) Isacson G, Shear M : *Intraoral salivary gland tumors : a retrospective study of 201 cases. J Oral Pathol.* 1983 ; 12 : 57-62
- 8) Neville BW, DammDD, Weir JC, Fantasia JE : *Labial salivary gland tumors. Cancer.* 1988 ; 61 : 2113-2116
- 9) Rousseau A, Mock D, Dover DG, Jordan RCK : *Multiple canalicular adenomas : a case report and review of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1999 ; 87 : 346-350
- 10) Waldron CA, El-Mofty SK, Gnepp DR : *Tumors of the intraoral minor salivary glands : a demographic and histologic study of 426 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1988 ; 66 : 323-333
- 11) Wiener AP, Meadows F : *Monomorphic adenoma, canalicular variant : report of case. J Oral Surg.* 1977 ; 35 : 414-415
- 12) 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
- 13) Daley TD : *The canalicular adenoma : considerations on differential diagnosis and treatment. J Oral Maxillofac Surg.* 1984 ; 42 : 728-730
- 14) Mair IWS, Stalsberg H : *Basal cell adenoma of minor salivary glands of the upper lip. Arch Otorhinolaryngol.* 1988 ; 245 : 191-195
- 15) Khullar SM, Best PV : *Adenomatosis of minor salivary glands : report of a case. Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1992 ; 74 : 783-787
- 16) de la Pava S, Karjoo R, Mukhtar F, Pickren JW : *Multifocal carcinoma of accessory salivary gland : case report. Cancer.* 1966 ; 19 : 1308-1310