

악하선 종양의 임상적 고찰

전주예수병원 외과
김동욱 · 양석민 · 오성수

= Abstract =

Clinical Finding of Submandibular Gland Tumor

Doog-Woog Kim, M.D., Suk-Min Yang, M.D., Sung-Soo Oh, M.D.
Department of Surgery, Presbyterian Medical Center, Cheon-ju, Korea

Objectives : Submandibular gland tumors is rare. The aim of this study is to get a clinical feature of submandibular gland tumors and to apply a treatment of submandibular gland tumors of future patients.

Methods : We analyzed retrospectively the 18 patients with submandibular gland tumors who were treated surgically at Presbyterian Medical Center(PMC), during the period of 8 years from 1992 to 1999. Analysis was performed regarding the incidence, classification, surgical treatment, surgical complication, recurrence and prognosis.

Result :

- 1) Male to female sex ratio was 1 : 1.25, the most prevalent age group was the 5th decade.
- 2) Benign tumors were 12 cases(66.7%) and malignant tumors were 6 cases(33.3%).
- 3) Histopathologically, the most common benign submandibular gland tumor was pleomorphic adenoma, and the most malignant submandibular gland tumor was adenoid cystic carcinoma.
- 4) In pleomorphic adenoma, excision of submandibular gland was performed in all case(8case). In malignant tumors, excision and supraomohyoid node dissection was performed in 3cases, and modified-radical neck dissection (RND) was performed in 2cases, and than standard RND was performed in 1case.
- 5) In the malignant tumor, we choose a radiation therapy as adjuvant therapy.
- 6) In a surgical complication of submandibular gland tumor, we had a facial nerve injury(1case).
- 7) Recurrence rate of submandibular gland tumor was 22.2%, and than all case were malignant tumor. Overall 5-year survival rate of submandibular gland cancer was 50%.

Conclusion : In above results, postoperative recurrence rate is low in benign, but high in malignant tumor of submandibular gland. Surgical procedure should not be aggressive in benign tumor, but should be aggressive in malignant tumor of submandibular gland and an adjuvant radiation therapy should be considered.

KEY WORDS : Submandibular gland tumors · Recurrence rate · 5-year survival rate · Adjuvant radiation therapy.

서 론

일반적으로 악하선 종양은 보기 드문 종양으로, 지금까지 악하선 종양만의 성상을 알 수 있는 국내 연구가 거의 없는 것이 현실이다. 본 연구는 악하선 종양의 임상적인 고찰을

교신저자 : 김동욱, 560-250 전북 전주시 완산구 중화산동 산300번지
전주 예수병원 외과
전화 : (063) 230-8229 · 전송 : (063) 230-8228

통해서 종양의 성향과 예후 등을 살펴봄으로 앞으로의 악하선 종양치료의 계획에 도움이 되고자 하였다.

방 법

본 연구는 본원에서 1992년부터 1999년까지 만 8년간 악하선 종양으로 진단, 치료를 시행하였던 환자 18명을 대상으로 하였다. 연구 자료 수집은 임상적 기록을 중심으로, 전 화방문, 서면 등을 통해서 시행하였으며, 통계학적인 검증

은 χ^2 -test를 이용하였고, p-value는 0.05이하로 하였다.

결 과

1. 유병률

종양의 빈도를 보면 동기간 본원을 내원 한 전체 종양 환자 3,863명 중, 두경부 종양 환자는 1663명(43.1%)으로 나타났다. 그 중에 타액선 종양 환자는 237명(6.1%)으로 나타났다. 그 중에 악하선 종양은 18명(0.4%)에서 진단되었다.

2. 성별분포

성별분포의 경우는 남자가 8명, 여자가 10명으로 남녀의 비율은 1 : 1.25로 나타났다. 또한 양성 종양의 경우는 남녀의 비가 1 : 1로 성별의 차이가 없었으나, 악성 종양의 경우는 1 : 2로 여자가 더 많은 것으로 나타났다(Table 1).

3. 연령별 분포

연령을 보면 16세에서 80까지 다양하게 나타났으며, 평균은 48.3세로 나타났으며, 가장 많은 연령 분포는 35세에서 45세 사이에 주로 분포되어 있었다. 악성의 경우는 평균 연령이 56.3세로 높게 나타났다.

4. 증 상

악하선 종양의 주 증상은 18명, 모두가 악하선 부위에 종물을 주소로 내원하였으며, 1명의 경우는 고름이 흘러나온 것을 함께 호소하였다. 유병 기간은 1개월에서부터 600개월에 이르도록 아주 다양하였으며, 평균적으로 78개월로 나타났다(Table 2).

5. 환자의 과거력 및 사회력

과거력상에 1명에게서 hepatitis를 앓았던 과거력을 가진 적이 있었으나, 입원 당시에는 완치된 상태였으며, 사회력상에 흡연하는 사람은 5명(27.8%)이었으며, 이들 중 2명이 악성 종양 환자였으며, 이는 악성 종양 환자의 33.3%를 차지하고 있었다.

음주와 관련해서는 5명이 음주를 하고 있으며, 이들 중에

Table 1. Sex ratio of submandibular gland tumor

	Benign	Malignancy	Total
Male	6	2	8
Female	6	4	10
Total	12	6	18

Table 2. Duration of submandibular gland tumor

Duration(month)	Benign(%)	Malignancy(%)	Total(%)
<12	6(33.33)	1(5.66)	7(38.9)
12 - 60	3(16.67)	3(16.67)	6(33.3)
60 <	2(11.11)	2(16.67)	5(27.8)

서도 2명이 악성 종양 환자였다.

6. 종양의 진단적 방법

종양의 진단은 주로 이학적 소견과 CT만으로 이루어진 경우가 66.7%, CT와 초음파를 함께 시행하여 진단한 경우는 11.1%, CT와 MRI를 함께 시행한 경우도 11.1%였으며, 이학적 소견만으로 이루어진 경우도 11.1%나 되었다.

조직학적 검사는 수술 중에 Frozen Section으로 조직학적 진단이 이루어졌으며, FNAC를 시행한 경우는 없었다.

7. 외과적 수술방법

수술 방법으로 excision만 시행한 경우는 12명으로 66.7%, excision과 supraomohyoid node dissection을 동시에 시행한 경우는 3명으로 16.7%, excision과 modified radical neck dissection(RND)를 시행한 경우는 2명으로 11.1%, 그리고 excision과 standard-RND를 시행한 경우는 1명으로 5.6%를 차지하고 있었다(Table 3).

8. 병리 조직학적 분류

종물의 크기는 1.5cm에서 7.5cm로, 평균 3.4cm로 나타났다.

조직학적 검사 결과 최종적으로 양성 종양은 12명(66.7%), 악성 종양은 6명(33.3%)이었으며, 양성 종양의 경우 8명에서 pleomorphic adenoma로, 2명에서 benign mixed tumor로, 1명에서는 neurogenic tumor로, 그리고 1명에서는 lymphangioma로 보고되었다.

악성 종양의 경우는 3명에서 adenoid cystic carcinoma로, 1명에서 high grade mucoepidermoid tumor로, 1명

Table 3. Operation

	Benign	Malignancy	Total
Excision	12	-	12
Excision and upper neck dissection	-	3	3
Excision and m-RND	-	2	2
Excision and s-RND	-	1	1
Total	12	6	18

* : m-RND, modified radical neck dissection ; s-RND, standard radical neck dissection

Table 4. Histopathology of salivary gland tumor

Classification	No. of patient(%)	Total(%)
Benign		12(66.7)
Pleomorphic adenoma	8(44.4)	
Mixed tumor	2(11.1)	
Other	2(11.1)	
Malignant		6(33.3)
Adenoid systic carcinoma	3(16.7)	
Mucoepidermoid carcinoma	1(5.6)	
Adenocarcinoma	-	
Squamous cell carcinoma	1(5.6)	
Other	1(5.6)	

Table 5. Clinical feature of malignant tumor of submandibular gland

No.	Sex	Age	Symptom	Duration (month)	Histopath.	Stage(TNM)	Treatment	Recure	Survival month
1	Male	60	Mass	600	ACC	III(T ₃ N ₁ M ₀)	E+SND+RT	No.	95
2	Female	72	Mass	80	ACC	I(T ₂ N ₀ M ₀)	E+SND	Yes	37
3	Male	57	Mass	28	ACC	IV(T ₄ N ₀ M ₀)	E+SRND+RT	Yes	87
4	Female	33	Mass	1	LPH	I(T ₂ N ₀ M ₀)	E+SND	Yes	23
5	Female	80	Mass	40	SCC	IV(T ₄ N ₀ M ₁)	E+MRND+RT	Yes	12
6	Female	31	Mass	13	ME	IV(T ₃ N ₂ M ₀)	E+MRND+RT	No.	108

* : ACC, adenoid cystic carcinoma ; LPH, lymphoma ; SCC, squamous cell carcinoma ; ME, mucoepidermoid carcinoma ; E, Excision ; SND, supraomohyoid neck dissection ; SRND, standard radical neck dissection ; MRND, modified radical neck dissection ; RT, radiation therapy

에서 lymphoma로, 1명에서 squamous cell carcinoma로 전이성으로 보고되었다. 이 중에는 adenoid cystic carcinoma환자 중에 1명이 carcinoma arising in pleomorphic adenoma로 보고되었다(Table 4).

실제로 상피 세포 암의 환자는 내원 5년 전에 lower lip cancer로 wide excision한 기왕력이 있다.

9. 종양의 병기

악성의 경우 그 병기를 살펴보면(JICC 기준, 1998) 1기가 2명, 3기가 1명, 4기가 3명으로 나타났다. 4기인 경우 3명 모두 재발했으며, 그 중에 2명이 사망하였다(Table 5).

10. 합병증 및 재발율

수술에 의한 합병증은 1예로 종양 절제를 위해서 인면신경을 함께 절제한 경우로 전체의 5.6%를 차지하였다.

재발 여부의 경우는 4명에게서 재발하였으며, 모두 악성 종양의 경우였고, 사망은 3명으로 16.7%를 차지하고 있었고, 모두 악성 종양의 경우다.

사망자의 사망시기를 보면, 12개월에서 37개월이며, 평균 24개월로 되었다. 악성 종양 환자의 5년 생존율은 50%로 나타났다.

11. 입원 기간

평균 병원에 입원하는 기간은 양성 종양과 악성 종양의 차이는 없으며 9.3일로 나타났다.

고 찰

악하선 종양은 전체 종양의 1%미만, 두경부 종양의 약 3~5%를 차지하고 있는 종양으로 알려져 있다¹⁾. 타액선 종양의 대부분의 경우는 주로 이하선에 생기며, 그 뒤를 이어 악하선에 생기는 것으로 보고되어 있다. 남녀의 차이는 없는 것으로 알려져 있지만, 여자에서 조금 더 많은 종양으로 알려져 있다. 호발 연령을 보면 50~60대에 많은 것으로 되어 있으며¹³⁾⁸⁾¹⁴⁾, 원인에 대해서는 정확하게 알려진 것은 없으나, 악성 종양은 방사선 조사, 흡연, 유전적인 소인들이

원인으로 알려져 있다⁷⁾⁹⁾¹⁸⁾.

또한, 약 65%가 양성 종양으로 다른 타액선과 마찬가지로 pleomorphic adenoma가 주를 이루는 것으로 알려져 있으며³⁾¹⁸⁾, 그 외에 benign mixed tumor 등이 그 뒤를 따른다¹⁸⁾. 악성 종양은 드문 것으로 되어 있으나, 다른 부위의 종양에 비해서 악성 종양의 빈도가 상당히 높은 것으로 보고되어 있으며, 악성 종양의 경우는 다른 부위와는 달리 adenoid cystic carcinoma가 50%정도로 많은 부분을 차지하고 있으며, 그 외에 adenocarcinoma와 mucoepidermoid carcinoma 등이 있다³⁾¹⁸⁾.

예후는 양성 종양과 악성 종양간에 확연한 차이를 보이고 있는데, 양성 종양의 경우는 악하선 절제만으로도 완치가 가능하고, 그 재발율이 2%미만으로 되어 있으며, 생명과는 무관한 종양으로 알려져 있다. 악성 종양의 경우는 다른 장기의 악성 종양과 마찬가지로 병기에 따라 사망할 수도 있는 종양이지만, 5년 생존율은 50%, 10년 생존율은 36%로 보고되어 있어서¹⁸⁾, 악성 종양으로는 비교적 예후가 좋은 것으로 알려져 있다.

치료는 예후에서와 마찬가지로 양성 종양과 악성 종양 사이에 많은 차이가 있는데, 양성 종양의 경우는 악하선 절제만으로 충분한 치료가 될 수 있지만, 악성 종양의 경우는 현재 악하선 절제와 동측 경부 광청술을 시행한 후, 방사선 치료를 시행하는 것이 최근의 동향이다¹³⁾⁶⁾⁹⁾¹²⁾.

재발율은 처음 치료 후, 5년후 재발율은 57%이며, 10년 후 재발율은 52%로 보고하고 있다³⁾¹⁸⁾.

최근 예후 결정인자로 나이, 임상적 병기(clinical stage), 피부 침습, 신경조직의 침습 등이 보고되고 있는데, 특히 림프절의 전이 여부와 주위 신경과의 관계는 예후에 아주 중요한 인자로 알려져 있다⁹⁾.

본 연구의 결과를 보면, 본원의 경우는 전체 종양에 대해서 두경부 종양이 많은 부분을 차지하고 있는데, 이는 본원이 과거 두경부 종양 전문 병원이었던 점이었기 때문이었다고 생각되며, 타액선 종양의 그 비율은 7.6%로 높게 나타난 것도 그 이유라고 하겠다.

남녀의 비율은 여자에게서 조금 많은 것으로 나왔으며,

악성 종양에서 1:2로 여자가 더 많은 것으로 나타났다($p < 0.05$). 하지만, 표본의 수가 적어 통계적인 의미를 부여하기는 힘들다.

연령별로는 최근 발표한 내용은 60대에서 호발한 것으로 보고¹⁸⁾하고 있으나, 본 연구에서는 40대가 전체 환자 중 66.6%를 차지하고 있으며, 이는 종족간의 차이로 생각되고, 이를 위한 체계적인 연구가 필요한 것으로 생각된다.

악하선 종양의 원인을 살펴보면, 본 연구에서는 양성종양과 악성종양의 방사선 조사여부는 환자들의 인식이 없었으므로 조사하기가 힘들었으나, 흡연과 음주의 관계는 악성종양의 환자에서 좀더 많은 수가 흡연을 하고 있었다. 하지만, 모집단의 수가 적어서 통계적인 의미를 부여하기는 힘들지만, 흡연과는 밀접한 관계가 있는 것으로 사료된다.

종양의 진단에 있어서 대부분이 이학적 검사와 CT에 의존하고 있었으며, 2명만이 초음파에 의한 진단이 이루어졌으며, 이들도 후에 CT를 시행하였으며, CT는 수술 전 종양의 경계, 침습, 전이 등을 알 수 있는 중요한 검사라고 생각된다. 술 전 CT의 진단의 정확도는 87.5%를 기록하고 있으며, 특히, CT에서 악성종양으로 진단한 경우에는 100% 악성으로 최종 진단되었다. FNAC는 과거에는 기술적 문제와 장비 문제로 시행하지 못했으나, 최근 본원에서도 조직학적 진단에 적극 활용하고 있으며, CT와 FNAC는 악하선 종양의 술 전 진찰의 중요한 도구로 생각되어지며, 그 유용성을 위해서 좀더 체계적이고 대규모의 연구가 필요한 것으로 사료된다.

수술 방법에서 양성 종양의 경우는 단지 종양 절제술만으로도 재발 및 예후가 좋은 것으로 생각되고, 악성 종양의 경우는 본원의 경우에서와 같이 종양뿐 아니라, 광범위한 림프관 절 광청술을 시행하는 것이 재발을 줄일 수 있는 방법이라 하겠다. 악성종양 환자의 경우 주로 1기인 경우는 excision과 upper neck dissection을 시행하였고, 3기 이상의 경우는 excision과 radical neck dissection을 시행하였으며, 수술 후 adjuvant radiation을 시행하였다.

병리 조직학적 결과는 악하선의 경우도 다른 타액선의 종양과 마찬가지로 양성인 경우는 pleomorphic adenoma가 다수를 차지하였고, 그 외 mixed tumor 등이 있었고, lymphangioma도 1예가 있었다. 악성 종양의 경우는 adenoid cystic carcinoma 3명을 차지하였고, mucoepidermoid carcinoma와 lymphoma, 그리고 squamous cell carcinoma가 각각 1예가 있었다.

특이한 점은 악성 종양의 경우, 다른 타액선과는 다르게 adenoid cystic carcinoma가 많은 부분을 차지하고 있었다.

합병증의 경우는 1예에서 나타났는데, 종양 침습에 의한 안면 신경절단술을 시행한 경우였으며, 다른 타액선 종양과는 달리 합병증은 많지 않았다. 이는 아마도 해부학적으로

수술의 난이도가 높은 부위가 아니고, 중요 신경이나 혈관들과의 연관이 적은 것이 그 원인으로 생각된다.

재발율의 경우도, 양성 종양의 경우는 거의 없는 것으로 나타났고, 4명 모두가 악성의 경우에서 재발하였으며, 모두 3기 이상의 환자에게서 나타났다. 재발 부위 또한 다양하게 나타났는데, 주위 피부에 재발한 경우가 3명으로 모두가 사망에 이르렀다. 나머지 한 명에서는 주위 소 타액선에 전이성으로 생긴 경우가 있었다. 사망 시기에 따르면 처음 치료로부터 평균 1년 정도였으며, 악성 환자의 5년 생존률은 50%지만 통계적 의미를 가지기에는 좀더 많은 수의 환자에 대한 자료 수집이 필요하다고 생각되어진다.

결 론

악하선 종양의 경우는 양성인 경우에는 다형 선종이 대다수를 차지하고 있다는 것은 다른 타액선과 같지만, 악성 종양의 경우는 adenoid cystic carcinoma가 다수를 차지하고 있으며, 악성종양의 예후 결정은 병리 조직학적 분류, 재발, 재발 부위가 피부인 경우 등으로 생각되며, 악성 종양의 경우 수술의 위험성이 떨어지는 부위라는 점을 고려, 좀더 적극적인 수술적 치료와 방사선 치료가 예후 개선에 도움이 될 것으로 본다.

References

- 1) Spiro RH : *Salivary neoplasms : Overview of a 35 years experience with 2,807 patient. Head Neck Surg. 1986 ; 8 : 177-184*
- 2) Callender DL, Frankenthaler RA, Luna MA et al : *Salivary gland neoplasms in children. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 1992 ; 118(5) : 472-476*
- 3) Weber RS, Byer RM, Petit B et al : *Submandibular gland tumors, Arch Otolaryngol Head Neck Sug. 1990 ; 116(9) : 1055-1060*
- 4) John ME, Nchlas NN : *Salivary gland tumors. In pararella MM, Shumrich DA et al : Otolaryngology, vol III, 3rd, WB Saunders Company, Phialdephia, 1991 : 2099-2127*
- 5) M John Hicks, Adel K El-Naggar et al : *Histocytologic graunding of mucoepidermoid carcinoma of major salivary glands in prognosis and survival. Head & Neck. 1995 ; 17 : 89-95*
- 6) Spiro RH, Armstrong J, Harrison L et al : *Carcinoma of major salivary glands. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 1989 ; 115 : 316-321*
- 7) John GA, Louis BH, Spiro RH et al : *Malignant tumors of major salivary gland origin. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 1990 ; 116 : 290-293*
- 8) Spitz MR, Batsakis JG : *Major salivary gland carcinoma : descriptive epidemiology and survival of 498 patient. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 1984 ; 110 : 45-49*

- 9) Armstrong JG, Harrison LB, Thaler HT et al : *The indications for elective treatment of the neck in cancer of the major salivary glands. Cancer. 1993 ; 69 : 615-619*
- 10) Seifert G, Sobin LH : *The World Health Organizations histologically classification of salivary gland tumors. Cancer. 1992 ; 70 : 379-385*
- 11) 김상효 · 백낙환 : 타액선 종양의 임상적 고찰. 대한외과학회지. 1985 ; 25(10) : 1335-1345
- 12) 박윤규 : 타액선 종양의 치료지침. 예수병원학술지. 1994 ; 15 : 68-74
- 13) 박성길 · 이삼열 · 오성수 등 : 타액선 악성선상낭종에 대한 임상적 고찰. 예수병원학술지. 1993 ; 14 : 101-108
- 14) 김명상 · 김명호 : 주 타액선종양 104예에 대한 분석. 대한두경부학술지. 1998 ; 14(1) : 40-45
- 15) 심윤상 · 오경균 · 이용식 등 : 타액선 종양에 관한 임상적 고찰. 한이인지. 1990 ; 33(2) : 329-338
- 16) 김 혁 · 남순열 · 김재호 등 : 타액선 종양에서의 술후 합병증 및 예후에 관한 고찰. 한이인지. 1997 ; 40(2) : 197-203
- 17) 원종훈 · 강성훈 · 유승렬 등 : 타액선 종양의 임상적 고찰. 한이인지. 1995 ; 38(12) : 2050-2057
- 18) Vincet LM, Vander P, Alfonsus JM : *Prognostic factors for longterm results of the treatment of patients with malignant submandibular gland tumors. Cancer. 1999 ; 85 : 2255-2264*
- 19) Spiro RH : *Changing trends in the management of salivary tumors. Semin Surg Oncol. 1995 ; 11 : 240-245*
- 20) O'Brien CJ, Soong SJ, Herrera GA et al : *Malignant salivary tumors-analysis of prognostic factors and survival. Head Neck. 1986 ; 9 : 82-92*