

## 석회화를 수반한 이하선내 선양암종

전북대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실 및 구강생체과학연구소  
송 행 은 · 고 광 준

### Adenocarcinoma of the parotid gland with calcification

Haeng-Eun Song, Kwang-Joon Koh

Department of Oral & Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, and Institute of Oral Bio Science, Chonbuk National University

#### ABSTRACT

A 78-year-old woman was referred to Chonbuk National University Dental Hospital complaining of facial palsy and palpable mass on the right parotid gland area. Clinical examination showed non-specific findings of the intraoral region, but showed asymmetrical facial appearance. Panoramic view showed a large amorphous calcified mass on the posterior to the mandibular ramus and thin cortical plate of the posterior ramus. Sialogram showed constriction of the main duct and no further filling of striated, intercalated ducts and parenchymal areas. CT scans demonstrated an irregular, infiltrating mass with slight enhancement in the right parotid gland. The mass showed necrotic areas and calcifications. Bone scan showed marked accumulation of <sup>99m</sup>Tc-MDP on the right posterior maxilla. Microscopic findings demonstrated the minimal morphologic alterations and rare mitotic figures within tumor cells, and diagnosed as adenocarcinoma (NOS, Grade II). This report could be aid in the diagnosis of calcified lesions of the salivary gland. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2002; 32 : 55-9)

**KEY WORDS** : adenocarcinoma; calcification; sialography

선양암종(adenocarcinoma)은 타액선에서 기원하는 악성 종양으로서 선상피로부터 기원한다. 대타액선에서 발생하는 선양암종은 비교적 드물며 예후는 일반적으로 좋지 않은 것으로 보고되었다.<sup>1,2</sup> 또한 이 암종은 조직학적 특징이 독특하여 일반적으로 그 특징을 잘 묘사할 수 있으나 일부 증례에서는 조직학적 특징이 불분명하여 분류하기 어려운 증례가 보고되었다.<sup>3,4</sup> 따라서 AFIP (the Armed Force Institute of Pathology)의 분류에서는 조직학적 특징이 불분명한 경우 비특이적 선양암종(adenocarcinoma not otherwise specified)이라는 용어를 사용하였다.<sup>5</sup>

임상적으로 비특이적 선양암종은 소타액선보다 대타액선에서 두배 정도 호발하며 보통 30대 이후에 발병한다.

방사선학적으로 일반방사선사진에서는 뚜렷이 관찰되지 않으나 타액선조영사진이나 전산화단층사진, 자기공명영상에서 이 병소를 잘 관찰할 수 있다. 타액선조영사진에서는

조영제의 주입이 되지 않거나 조영제가 저류되어 있는 양상으로 나타난다.<sup>1</sup> 전산화단층사진이나 자기공명영상에서는 공격적인 성향을 보이는 것과 팽창성인 성향을 보이는 것, 두 가지의 골파괴양상을 보이며 드물게는 석회화물을 포함하기도 한다.<sup>6</sup>

본 증례는 우측 이하선 부위에 발생한 비특이적 선양암종으로서 다량의 석회화물을 포함한 매우 드문 증례이다. 따라서 본 증례는 향후 두경부에 발생하는 석회화물을 포함한 타질환과의 감별진단 및 치료에 도움을 줄 수 있을 것으로 사료되어 문헌고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

#### 증 례 보 고

본 증례는 78세된 여성환자로서 2001년 8월 우측 안면 마비와 우측 이하선 부위의 촉진성 종괴를 주소로 전북대학교병원에 내원하였다. 1997년 9월부터 4년 동안 우측 안면마비를 치료하기 위하여 다른 병원에서 진료를 받은 병력이 있었으나 호전된 양상을 보이지 않았다. 또한 아등기에 속립성 결핵을 앓은 병력이 있었다.

임상검사시 우측 이하선 부위에 약 4×5 cm 크기의 경계

접수일: 2001년 12월 29일      채택일: 2002년 2월 13일  
Corresponding author: Prof. Kwang-Joon Koh  
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, 634-18,  
Keum-Am Dong, Duk-Jin Gu, Chon-Ju, Chonbuk, 561-712, South Korea  
Tel) 82-63-250-2063, Fax) 82-63-250-2081  
E-mail) radkoh@moak.chonbuk.ac.kr

가 명확하고 무통성인 종괴가 관찰되었으며 촉진시 단단하고 고정된 소견을 보였다(Figs. 1, 2). 또한 종괴로 인한 비대칭적인 안모가 관찰되었고, 우측 구각 부위의 떨림 현



Fig. 1. Extraoral photograph shows asymmetrical facial appearance due to buccal swelling on the right parotid gland area.



Fig. 2. Extraoral photograph shows exophytic mass on the posterior to the right mandibular ramus.



Fig. 3. Sialogram shows that the main duct is constricted and severed.

상이 있었으나 구강내 소견으로는 특이한 소견을 보이지 않았다.

방사선학적 소견으로 파노라마방사선사진에서 우측 하악지 후방 부위에 무정형의 석회화물이 관찰되었고 우측 하악지의 후연이 병소에 의해 압박되어 피질골이 비박된 소견을 보였다. 측방두부방사선사진에서 하악지 후방 부위에서 방사선불투과성 종괴가 관찰되었고 유양돌기 부위에서 방사선불투과성이 뚜렷이 증가되어 있었으며 우측 이하선의 타액선조영사진에서 주도관이 단절되었고 조영제가 실질조직내로 주입되지 않았다(Fig. 3). 또한  $^{99m}\text{Tc}$ 을 이용한 골스캔에서 상악 우측 후방 부위에 방사성동위원소가 국소적으로 집적되었다(Fig. 4). 측정단면 전산화단층사진에서는 큰 연조직성 종괴가 우측 이하선 부위에서 관찰되었으며 후방으로 흉쇄유돌근, 내측으로 내측익돌근, 외측으로는 심경근막의 표층까지 확장되어 있었고 병소의 심부에서 방사선불투과성 종괴와 그 주변부로 괴사 부위가 관찰되었다. 조영증강 측정단면영상에서 방사선투과상을 보이는 중심부와 비균질 조영증강상을 나타내는 주변

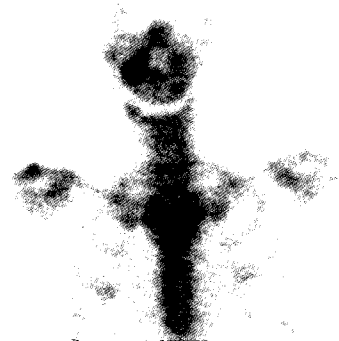
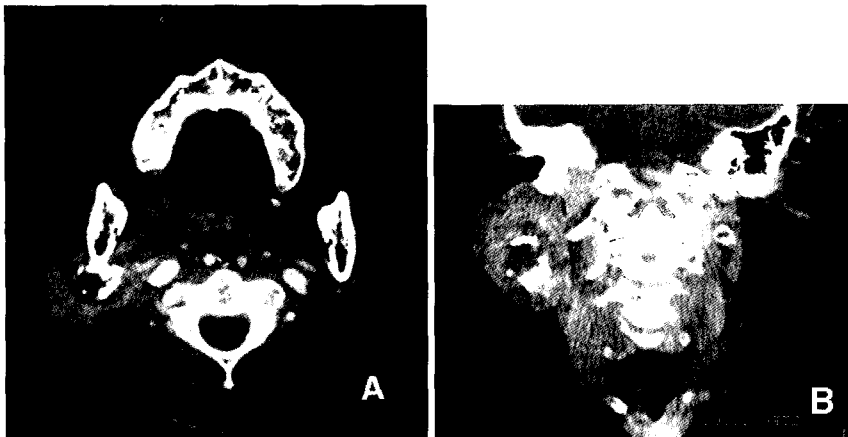
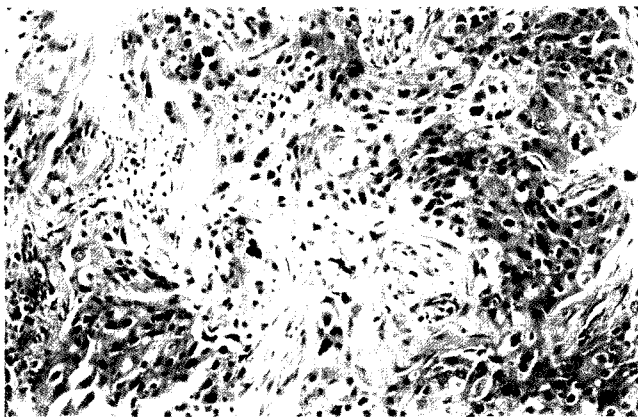


Fig. 4. Bone scan ( $^{99m}\text{Tc}$ ) shows increased uptake of radioisotope on the right posterior maxilla.



**Fig. 5.** A,B. CT scans show an irregular infiltrating mass with slight enhancement, necrotic area, and amorphous calcification in the right parotid gland area.



**Fig. 6.** Microscopic finding shows minimal morphologic alterations and rare mitotic figures within tumor cells (H & E stain,  $\times 450$ ).



**Fig. 7.** The lesion shows that the tumor cells invade into neural sheath (H & E stain,  $\times 100$ ).

의 괴사 부위가 분명하게 관찰되었다(Fig. 5A). 또한 부인 두간극과 인두가 종괴의 성장에 의해 좌측에 비해 우측의 크기가 감소되었으며 우측 내경정맥이 확장되어 있었다. 관상단면영상에서 내측으로 악이복근과 내측익돌근, 하방으로 흉쇄유돌근, 외측으로는 피부에 인접하여 외방성의 성장양상에 의해 비대칭적인 안모를 보였다(Fig. 5B). 흉부 방사선사진에서 간질에 미만성인 방사선불투과성의 작은 결절이 관찰되었고 결절 주위로 수지상모양의 섬유화가 관찰되었다. 그러나 이전의 흉부방사선사진과 비교하였을 때 시간경과에 따른 방사선사진상의 변화는 보이지 않았다.

수술시 단단하고 고정된 석회화된 종괴가 이하선의 심엽과 천엽 사이에 있었으며 이는 이하선과 함께 제거되었다. 남아있는 표층의 이하선조직도 제거되었고 심엽의 경우 제거 가능한 부위는 모두 절제되었다. 안면신경 또한 종양에 의해 침범되어 절제되었다. 외경동맥도 암조직에 의해 침윤되어 이를 묶은 후 주변조직을 제거하였다.

조직병리학적 소견에서 형태학적 변이는 적었고 종양세

**Fig. 8.** The lesion shows incremental line between the layer of mature collagenization, namely hyalinization and immature collagenized layer (H & E stain,  $\times 200$ ).

포내에서 분열 양상이 드물게 관찰되었다(Fig. 6). 또한 특이하게 뚜렷한 골양조직이 비특이적으로 괴사된 조직 사이에서 관찰되었다. 종양세포가 간질세포층에도 침윤되었

으나 세포학적 특징으로 핵이나 핵의 외형이 소실되고 있었다. 결과적으로 종양의 중심부 세포들은 괴사되었고 신경초에서 종양세포의 침윤이 관찰되었다 (Fig. 7). 석회화 부위의 고배율소견에서 완전히 콜라겐화 되어 있는 초자화 상태로 된 층과 덜성숙된 콜라겐층 사이에서 성장선이 형성되었다 (Fig. 8). 이상의 소견을 종합하여 본 증례는 비특이적 선양암종으로 진단하였다.

## 고 찰

선양암종은 선조적 악성변환으로 뚜렷한 조직학적 특징이 있는 반면에 비특이적으로 뚜렷한 특징이 없는 증례들이 보고되었다. Foote와 Frazell<sup>7</sup>은 877 증례 중 39 증례를 혼합성 (miscellaneous) 선양암종으로 분류하였고, Thackray와 Lucas<sup>8</sup>은 이하선의 1%와 악하선의 1.7%에서 비분류된 선양암종을 보고한 바 있으며, Spiro 등<sup>3</sup>은 타액선 종양 2,807 증례 중 약 8%가 이러한 형태를 보인다고 하였다. 또한 비분류된 선양암종은 일정한 비율로 나타나고 양성종양 중 1.9-11.8%, 악성종양 중 44.7%를 차지한다고 보고되었다.<sup>5,9,10</sup> 따라서 AFIP에서는 이러한 암종을 비특이적 선양암종이라 명명하였다. AFIP에서 분류한 881 증례의 타액선 종양 중 6.4%가 비특이적 선양암종이었고 이는 모든 타액선 상피암종의 17.4%에 해당한다. 비특이적 선양암종은 타액선의 악성종양 중 점액표피암종과 선방세포암종 다음으로 세번째로 흔히 발생하며 대타액선에서 66.2%, 소타액선에서 33.8%가 보고되었다. 또한 타액선 중 이하선에서 50%, 설하선에서 12%, 구개부의 소타액선에서 15%가 발생하는 것으로 보고되었다.<sup>1</sup> 본 증례는 우측 이하선 선세포로부터 발생한 비특이적 선양암종으로 진단되었다.

비특이적 선양암종은 30대에서 70대 사이에 주로 발생하며 평균연령은 55.6세이다. 20대 이하에서는 2.6%가 보고되어 현저히 낮은 발생률을 보인다.<sup>2,11</sup>

비특이적 선양암종의 거시적인 외형은 타액선의 고정된 선양암종의 다른 유형과 유사하다. 선실질조직이 고정되고 단단한 종괴로 대체되며 인접조직을 압박하는 양상이다. 종괴의 단면은 백색이나 황백색을 띠고 국소적으로 울혈 부위나 괴사 부위가 관찰된다. 세포분화의 정도는 폭넓은 범위를 가지며 세포형태에 기초를 둔 분류로서 비특이적 선양암종은 I, II, III군으로 나뉜다.<sup>3</sup> I군에 속하는 종양은 경계가 비교적 명확하나 국소적으로 침윤된 양상을 보인다. 이러한 종괴는 많은 수의 잘 형성된 도관모양의 구조를 포함하고 있고 종양세포가 세포형태학적으로 정상세포와 유사하여 양성으로 오진되기도 한다. 종양세포들은 분열중인 세포가 거의 없고 핵의 크기나 형태가 최소의 변이를 보인다. 낭강 (lumina) 중심부는 약간 비대해진 핵을 가진 입방세포에 의해 이장되고 울타리 모양으로 배열된다. II군에 해당하는 종양은 분명하게 선구조 분열양상을

보이고 선양암종으로 비교적 쉽게 인지할 수 있다. 그러나 I군보다는 분열양상과 형태학적 다양성이 좀더 빈번하게 관찰된다. III군은 성장양상이 보다 치밀하고 다형핵과 많은 세포분열 중인 세포를 함유하며 세포들이 작은 균을 이루어 선세포 분열체의 모습과 유사하다. 세포질내 mucin은 mucin carmin stain으로 종종 관찰될 수 있으며 괴사와 울혈 (hemorrhage)이 두드러진다. 때때로 세포들이 치밀하게 밀집되어 있어 종양거세포로 관찰된다. 본 증례는 형태학적 변이는 두드러지지 않았으나 종양세포내에서 분열양상이 다소 관찰되어 II군으로 분류하였다.

장기간의 추적검사에 비특이적 선양암종의 생물학적 특성은 상대적으로 제한된 성장양상을 보이지만 임상적인 단계, 조직학적 등급, 이환 부위 등에 따라 영향을 미친다.<sup>3,5</sup> 비특이적 선양암종의 임상적 특징은 동등성이며 빠른 성장의 종괴, 촉진시 단단하고 고정성이나 종종 무통성이며 서서히 성장하기도 한다. 또한 대부분 신경을 침범하는 경향을 보이기도 한다.<sup>12,13</sup>

선양암종의 방사선학적 특징은 타액선조영사진에서 갑자기 주도관의 주행이 단절되거나 실질조직내로 조영제가 채워지기도 하며, 조영제가 불규칙한 양상으로 저류되기도 한다.<sup>1,14</sup> 또한 종괴는 공격적이거나 팽창성인 골파괴 양상으로 관찰된다. 병소내의 석회화는 흔하지 않으나 석회화 양상이 나타난 경우에는 미세한 석회화 양상으로 나타나며 이를 사모나체 (psammoma bodies)라고 한다.<sup>6</sup> 이하선내에서 석회화 양상이 관찰될 때에는 다형선종, 림프질의 석회화, 그리고 전이성 암종 등과 감별하여야 한다.<sup>15,16</sup>

Spencer 등<sup>17</sup>은 이하선으로부터 발생한 다형선종 중 한 증례의 전산화단층사진에서 뚜렷한 석회화를 관찰하였고 보고하였으며 이는 악성으로의 전환을 암시하지만 일반적인 소견은 아니라고 하였다.<sup>6,18</sup> 특히 이러한 경우에는 사모나체인 작은 결절형태의 석회화가 야기될 수 있다. 그러나 본 증례에서 관찰된 석회화 유형은 파노라마방사선 사진에서 쉽게 관독할 수 있는 1.4×1.5 cm 크기의 무정형의 석회화 양상을 나타내었고 조직병리학적으로 완전한 콜라겐화가 이루어진 초자화상태를 보이는 무기질의 석회화양상이었다. 또한 본 증례에서 환자가 속립성 결핵에 이환되어 자연치유된 병력이 있어 림프질의 석회화와 감별해야 한다. 결핵에 이환된 후 발생하는 림프질 석회화는 악하 림프절이나 경부 림프절, 때때로 이하 림프절에 이환될 수 있다. 본 증례에서의 석회화는 이하 림프질의 위치와 다르고 결핵치유 후에 나타나는 림프질 석회화는 조직병리학적으로 작은 구형상의 석회화를 나타내어<sup>19</sup> 본 증례의 석회화와 감별되었다. 감별진단시 고려해야 할 전이성 병소로서 갑상선암<sup>20</sup>과 유방암<sup>21</sup>의 경우 석회화를 동반할 수 있으나 본 증례에서 원발성 악성병소의 병력은 없었다.

본 증례에서의 석회화는 종괴의 크기가 커짐에 따라 혈류공급의 저하로 병소의 중심부가 괴사되고 괴사조직으로

부터 유리된 칼슘과 인의 농도가 증가됨에 따라 석회화가 유도된 것이라 생각된다.<sup>22</sup>

비특이적 선양암종은 초기치료로써 외과적 절제술이 추천되며 종괴의 분화정도에 따라 치료방법이 선택된다. Spiro 등<sup>3</sup>은 이하선 절제술과 근치경부곽청술 (radical neck dissection)을 함께 시행한 17명의 환자 중 10명은 경부 림프절 비대증을 보였고 그 중 9명의 환자에서 림프절로의 전이를 나타내었다고 보고하였다. 타액선 종양치료로써 방사선치료는 제한된 유용성을 보였다.<sup>2, 23, 24</sup> 비특이적 선양암종은 다른 타액선 종양보다 방사선감수성이 낮은 것으로 보고되었고 특히 III군과 말기 종양환자의 5년 생존율은 낮다.<sup>5, 14</sup> 한편 Tran 등<sup>25</sup>은 선양암종에 이환된 17명의 환자 가운데 외과적 수술만 단독으로 시행한 3명 중 2명, 술후 40-60 Gy의 방사선치료를 병행한 6명 중 한명에서 전이성 병소가 나타났다고 보고하였다. 본 증례의 경우는 이하선 완전 절제술을 시행한 후 54 Gy의 방사선치료를 병행하였다.

결론적으로 본 증례는 선양암종내 다량의 석회화를 보이는 매우 드문 증례로서 석회화를 보이는 타질환과의 감별진단에 도움이 될 수 있을 것으로 사료된다. 향후 더 많은 증례를 통해 석회화의 발생 원인을 규명하는 것이 중요하리라 생각된다.

### 참 고 문 헌

1. Nishijima W, Tokita N, Takooda S, Tsuchiya SI, Watanabe I. Adenocarcinoma of the sublingual gland: Case report and 50 year review of the literature. *Laryngoscope* 1984; 94: 96-101.
2. Tu G, Hu Y, Jiang P, Qin D. The superiority of combined therapy (surgery and postoperative irradiation) in parotid cancer. *Arch Otolaryngol* 1982; 108: 710-3.
3. Spiro RH, Huvos AG, Strong EW. Adenocarcinoma of salivary origin: Clinicopathologic study of 204 patients. *Am J Surg* 1982; 144: 423-31.
4. Sharkey FE. Systematic evaluation of the world health organization classification of salivary gland tumors. *Am J Clin Pathol* 1977; 67: 272-8.
5. Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR. Surgical pathology of the salivary glands. vol 25 in the series. Philadelphia: WB Saunders; 1991. p. 318-32.
6. Kurabayashi T, Ida M, Yoshino N, Sasaki T, Ishii J, Ueda M. Differential diagnosis of tumours of the minor salivary glands of the palate by computed tomography. *Dentomaxillofac Radiol* 1997; 26: 16-21.
7. Foote FW Jr, Frazell EL. Tumors of the major salivary glands. *Cancer* 1953; 6: 1065-133.
8. Thackray AC, Lucas RB. Tumors of the major salivary glands. *Fascicle 10. Atlas of tumor pathology. 2nd series. Washington DC: Armed Force Institute of Pathology; 1994. p. 104-6.*
9. Woods JE, Chong GC, Beahrs OH. Experience with 1,360 primary parotid tumors. *Am J Surg* 1975; 130: 460-2.
10. Rosenfeld L, Sessions DG, McSwain B, Graves H Jr. Malignant tumors of salivary gland origin: 37-year review of 184 cases. *Ann Surg* 1986; 8: 177-84.
11. Castro EB, Huvos AG, Strong EW, Foote FW Jr. Tumors of the major salivary glands in children. *Cancer* 1972; 29: 312-7.
12. Som PM, Curtin HD. *Head and Neck Imaging. 3rd ed. St. Louis: Mosby-Year Book Inc; 1996. p. 895.*
13. Curran AE, White DK, Damm DD, Murrah VA. Polymorphous low-grade adenocarcinoma versus pleomorphic adenoma of minor salivary glands: Resolution of a diagnostic dilemma by immunohistochemical analysis with glial fibrillary acidic protein. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2001; 91: 194-9.
14. Som PM, Shugar JM. Parotolymphatic backflow: A new sign of malignancy. *Ann Otol* 1981; 90: 64-6.
15. Lee K, Swei Y, Yamada T, Masuda S, Ogawa I, Tanimoto K. Case report: Bone formation in a carcinoma of the maxillary antrum. *Dentomaxillofac Radiol* 1999; 28: 375-7.
16. Chen YK, Lin LM, Lin CC, Yan YH. Palatal pleomorphic adenoma in a child with osteoid formation: Report of case. *ASDC J Dent Child* 1998; 65: 209-11.
17. Spencer J, Mason A, Denton K. Ossifying parotid carcinoma ex pleomorphic adenoma: CT findings. *J Comput Assist Tomogr* 1991; 15: 516-8.
18. Fu KK, Leibel SA, Levine ML, Friedlander LM, Boles R, Phillips TL. Carcinoma of the major and minor salivary glands: Analysis of treatment results and sites and causes of failure. *Cancer* 1997; 40: 2882-90.
19. Sakae T, Yamamoto H. Crystals and calcification patterns in two lymph node calcifications. *J Oral Pathol* 1987; 16: 456-62.
20. Higashi T, Itoh K, Nishikama Y, Manabe Y, Ozaki O, Mimura T. Soft tissue radiographic studies of calcification in thyroid nodules. *Jpn J Clin Radiol* 1984; 29: 869-73.
21. Smathers RL, Bush E, Drace J, Stevens M, Sommer FG, Brown BW Jr, et al. Mammographic microcalcifications: detection with xerography, screen-film and digitized film display. *Radiology* 1986; 159: 673-7.
22. Hamakawa H, Takarada M, Ito C, Tanika H. Bone-forming pleomorphic adenoma of the upper lip: Report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1997; 55: 1471-5.
23. Byun YS, Fayos JV, Kim YH. Management of malignant salivary gland tumors. *Laryngoscope* 1980; 90: 1052-60.
24. Chung CT, Sagerman RH, Ryoo MC, King GA, Yu WS, Dalal PS. The changing role of external-beam irradiation in the management of malignant tumors of the major salivary glands. *Radiology* 1982; 145: 175-7.
25. Tran L, Sadeghi A, Hanson D, Juillard G, Mackintosh R, Calcaterra TC, et al. Major salivary gland tumors: treatment results and prognostic factors. *Laryngoscope* 1986; 96: 1139-44.