

---

## 이하선의 상피-근상피암종

- 세침흡인 세포검사에서 다형성선종으로 오진된 1 예 보고 -

가톨릭대학교 의과대학 임상병리과

김 동 철·이 아 원·이 교 영·강 창 석·심 상 인

---

= Abstract =

### Epithelial-Myoepithelial Carcinoma of the Parotid Gland

- Report of a Case Misinterpreted as Pleomorphic Adenoma on  
Fine Needle Aspiration Cytology -

Dong-chul Kim, M.D., Ahwon Lee, M.D., Kyo Young Lee, M.D.,  
Cang Suk Kang, M.D., and Sang In Shim, M.D.

Department of Clinical Pathology, College of Medicine, The Catholic University of Korea, Seoul, Korea

Epithelial-myoepithelial carcinoma(EMC) is a rare, low grade malignant tumor of the salivary glands. The EMC has a distinctive histological appearance comprising ductal structures with an inner epithelial cell component and an outer layer of myoepithelial cells which show plump clear cytoplasm. The cytologic features of the EMC have been rarely described. A correct cytological diagnosis to this rare tumor is difficult with high false negative rate. We report a case of EMC in which fine needle aspiration cytologic findings were misinterpreted as a pleomorphic adenoma.

**Key words:** Epithelial-myoepithelial carcinoma, Pleomorphic adenoma, Parotid gland, Fine needle aspiration cytology

---

책임저자 : 이아원

주 소 : (150-713) 서울특별시 영등포구 여의도동 62, 성모병원 임상병리과

전 화 : 02-3779-2157

팩 스 : 02-783-6648

E-mail address : klee@catholic.ac.kr

※ 본 논문은 가톨릭암센터 연구보조로 이루어졌음

## 서 론

상피-근상피암종은 타액선 종양의 약 1%를 차지하는 드문 종양으로, 주타액선 특히 이하선에 호발한다.<sup>1)</sup> 서서히 자라는 저등급의 악성 종양으로 30%의 재발율과 8~35%의 원격 전이를 보인다.<sup>1)</sup> 기저세포암종, 선방세포암종, 저등급의 점액표피양암종 등을 포함하는 이하선에 발생하는 저등급의 악성 종양은 세포학적 이형성이 미약하지만, 세포학적 진단에 유용한 특징적 소견과 감별점이 잘 알려져 있어 세침흡인 세포검사가 진단에 도움을 주고 있다. 그러나, 상피-근세포암종은 소수의 제한된 증례보고 만이 있으며, 종양세포의 구성비율에 따라 다양한 세포학적 소견을 보이므로 위음성율이 높고 세포학적 진단이 어렵다.<sup>2-6)</sup> 이에 저자들은 세침흡인 세포검사상 다형성 선종으로 오인된 상피-근상피암종을 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증 례

### 1. 임상적 소견

60세 남자가 2년 전부터 좌측 이하선 부위에 만져지는 무통성의 종괴를 주소로 내원하였다. 환자는 5년 전부터 좌측 안면부에 마비증세가 있었으나, 그외 특이 과거력과 가족력은 없었다. 이학적 검사상 좌측 이하선 부위에 장경 약 8cm 정도의 단단하고 고정된 종괴가 촉지되었다. 좌측 안면신경마비 증상 외에 청각, 균형감각 등의 이상은 보이지 않았다. 주변의 림프절 종대는 없었다. 전산화단층촬영 소견상 조영증강되는 분엽상의 고형성 종괴로 내부출혈소견이 관찰되었다. 종괴로부터 세침흡인 세포검사 후 이하선 전절제술을 시행하였다.

### 2. 세포학적 소견

이하선 종괴의 세침흡인 도말에서 세포밀도는 높았으며, 종양세포들은 낱알으로 흩어지거나 판상구조 또는 군집을 형성하였다. 판상구조는 한층이나 여러 층으로 불규칙하였고, 군집은 3차원적으로 분지되는 양상이었다(Fig. 1). 일부 군집의 가장자리로 다형성선종을 연상하게하는 진한 호산성의 초자양물질이 퍼지듯이 관찰되었다(Fig. 2). 종양세포는 2가지 형태의 세



Fig. 1. Low power view of FNAC findings : There are individual or irregularly shaped syncytial fragments or three dimensional clusters of tumor cells in hemorrhagic background(H-E).



Fig. 2. An area reminiscent of pleomorphic adenoma : A few clusters of tumor cells surrounded by homogeneous, acellular material are seen(Papanicolaou).

포로 구성되어 있었다. 크기가 좀 더 큰 다수의 세포는 세포질이 풍부하고 과립 또는 미세공포를 갖고 있었으며 핵은 둥글거나 난원형의 수포성이었고 핵소체가 뚜렷하였다. 종양세포 군집에서 현미경 위상을 달리하면, 좀더 작고 짙은 종양세포들이 뚜렷하게 구별되는데, 이들 세포는 세포질이 거의 없고 핵은 진하게 염색되며, 세관이나 코오드를 형성하고 있었다(Fig. 3). 출혈성 배경에 낱알로 관찰되는 종양세포는 좀더 큰 세포의 나핵이었으며, 일부에서는 띠모양이나 공모양의 초자양물질과 이를 둘러싸는 좀더 작고 짙

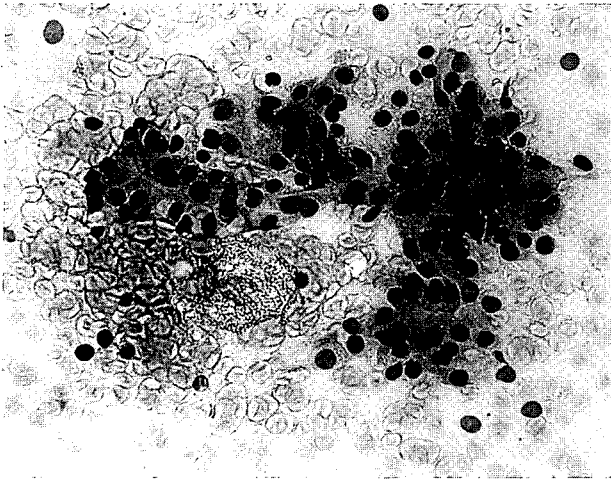


Fig. 3. High power view of FNAC findings : Small darker ductal epithelial cells forming tubules and larger myoepithelial cells with plump cytoplasm and vesicular nuclei are observed(Papanicolaou).

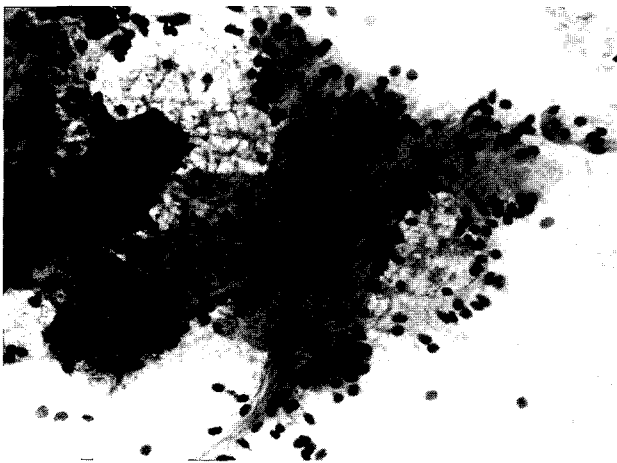


Fig. 4. An area reminiscent of basal cell adenoma or adenoid cystic carcinoma : Homogeneous acellular hyaline cores with peripherally arranged small dark ductal epithelial cells are observed(Papanicolaou).

은 종양세포들이 관찰되어 기저세포선종을 연상하게 하였다(Fig. 4).

### 3. 조직학적 소견

적출된 이하선은 크기 6.5×5.0×4.0cm, 무게 75.0gm 이었다. 종괴는 장경 6.0cm의 분엽상으로 절단면은 회갈색의 충실성이었다. 조직학적으로 일부에서 섬유성 가성피막을 보이는 침윤성 종괴였다. 종양세포는 정상 이하선의 관상피세포와 근상피세포로의 분화를 보

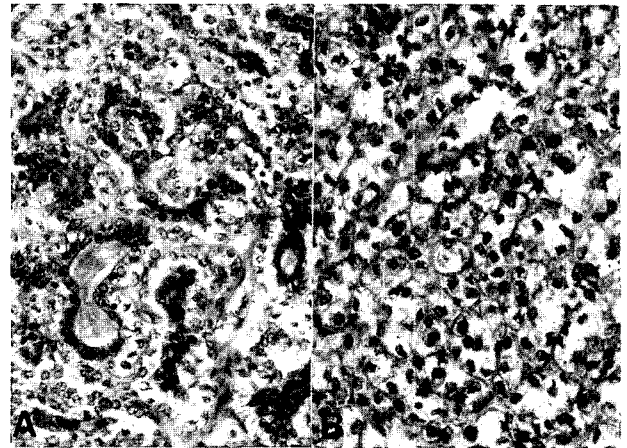


Fig. 5. Histology of epithelial-myoeplithelial carcinoma : (A) Small dark ductal epithelial cells surround lumens and themselves are surrounded by larger and clear myoepithelial cells. (B) This area contains exclusively clear myoepithelial cells.

이는 2가지 형태의 세포로 구성되어 있었다. 관상피세포로의 분화를 보이는 세포는 세관을 형성하며, 세포질의 양이 적고 호산성이었으며 핵은 진하게 염색되고 핵소체는 뚜렷하였다. 근상피세포로의 분화를 보이는 투명세포는 관상피세포의 가장자리에 분포하고 있었으며, 관상피세포보다 좀더 크며, 세포질은 풍부하며 투명하고, 핵은 수포성이고 핵소체는 일부에서 관찰되었다. 종괴의 부위에 따라서 근상피와 관상피의 비율이 다양하게 관찰되었는데, 세관형성이 뚜렷하고 관상피양 분화세포가 다수 관찰되는 부분과 관상피세포의 분화를 거의 보이지 않으면서 투명세포의 관상 또는 육주양 배열만을 보이는 부분까지 다양하였다(Fig. 5). 관상피세포양 분화를 보이는 세포는 cytokeratin에 양성, actin과 S-100 단백질에 음성 반응을 보였으며, 근상피세포로의 분화를 보이는 투명세포는 cytokeratin에 음성, actin과 S-100 단백질에 양성 반응을 보였다.

## 고 찰

상피-근상피암종은 1972년 Donath 등<sup>7)</sup>이 처음으로 보고하였으며, 초기에는 분화가 좋은 점 때문에 양성 종양으로 알려졌으나, 침윤성 성장, 주변 조직의 파괴, 신경주위의 침윤, 재발, 전이 등이 확인됨에 따라 저등급의 암종으로 분류되었으며, 1991년에는 WHO 분류에 포함되었다. 상피-근상피암종은 개체관세포 기원으로 60대에 호발하며 2-3:1로 여자에서 흔하다.<sup>1)</sup>

임상적으로 대부분에서 국소 종창만을 보이지만, 본 증례와 같이 안면신경 마비를 동반하기도 한다.

조직학적으로 2가지 종류의 종양세포를 특징으로 하며, 세관을 형성하는 관상피세포와 그 주위를 둘러싸는 근상피세포로 구성되며, 이들 구조는 호산성의 얇은 기저막으로 둘러싸여 있다. 관상피세포의 비율은 종양에 따라 다르고, 같은 종양이라도 부위에 따라 달라, 거의 관찰되지 않거나 1/3까지 차지하기도 한다. 상피-근상피암종의 세포학적소견은 저자들이 아는 한, 총 19예가 보고되었다.<sup>2,17)</sup> 10예(53%)는 수술전 세침흡인 세포검사서 악성으로 판독하였고 4예(21%)는 타액선 종양 진단하에 선양낭성암종, 상피-근상피암종, 다형성선종 등을 감별 진단으로 포함하였으며, 5예(26%)는 위음성으로 판독되었다. 위음성으로 진단된 5예는 모두 다형성선종으로 진단되었으며, 이중 4예에서 세포학적 소견을 기술하였다. 이들 4예는 모두 초자양 물질이 관찰되었으며, 2예에서 뚜렷한 투명세포가 관찰되지 않았다. 세관을 형성하는 관상피세포 군집과 나핵 세포는 각각 3예에서 관찰되었다.

Carrillo 등<sup>15)</sup>은 3차원적 군집, 군집의 변연부에서 관찰되는 투명 세포, 군집을 둘러싸는 초자양 물질이 상피-근상피암종을 진단하기에 충분한 소견이라고 하였고, Arora 등<sup>14)</sup>은 높은 세포밀도, 2가지 종류의 종양 세포, 투명세포 군집 그리고 배경에 흩어진 나핵 세포가 진단적이라고 주장하였다. 그러나 Stewart 등<sup>5)</sup>은 군집의 변연부에서 관찰되는 투명세포나 초자양 물질보다, 관상피세포의 세관형성이나 무수히 관찰되는 나핵 세포가 상피-근상피암종의 진단에 중요한 소견이라고 주장하였다. 본 증례는 관상으로 배열하거나 배경에 나핵으로 흩어진 근상피세포와, 세관이나 코오드를 만드는 관상피세포의 2가지 종류의 상피성 종양세포로 구성되고, 이들 구성 세포들은 비정형성, 다형성이 없었다. 또한 군집을 둘러싸는 초자양 물질이 뚜렷하여 조직검사 전 세침흡인 세포검사는 다형성선종을 시사하는 기술과 함께 양성 병변으로 진단하였다. 그러나 뚜렷한 점액연골양 기질이나 원섬유성 간질조직이 없이 비세포성 초자양 물질만 관찰되었으며, 근상피세포들이 다형성선종에서 보이는 다양한 분화, 특히 방추형 세포로의 분화를 보이지 않는 점이 다형성선종의 도말소견과 달랐다.

선방세포암종은 세포밀도가 높고, 배경에 나핵이 존재하며 종양세포의 세포질이 풍부하며 과립성 또는 미세공포성이라는 점에서 유사하지만, 뚜렷한 선방구

조가 없으며 2가지 형태의 종양세포로 구성된다는 점으로 구별할 수 있다. 상피-근상피암종은 종종 띠모양의 초자양 물질이나 초자양 구를 둘러싸는 관상피세포를 보여 선양낭성암종이나 기저세포선종과의 감별 진단이 중요하나,<sup>4,9-11,15)</sup> 본 증례는 상기 소견이 극히 일부에서만 관찰되며, 다수의 세포가 풍부한 세포질의 근상피분화를 보여, 적은 양의 세포질을 가지는 기저세포로의 분화를 주된 특징으로 하는 상기 질환과는 쉽게 감별할 수 있었다.

상피-근상피암종은 빈도가 드물고 종양세포의 이형성이 적고, 상기 세포학적인 특징을 모두 나타내기 보다는 2가지 종양세포의 구성 비율에 따라 세포학적 소견이 다양하게 나타날 수 있으므로, 세침흡인 세포검사서 정확한 진단에 어려움이 있다. 그러므로 근상피세포로의 분화를 보이는 타액선 종양의 세포진단시 언제나 감별진단으로 그 가능성을 생각하여 배제하는 것이 진단율을 높이는 데 도움을 주리라 생각한다.

## 참 고 문 헌

1. Ellis GL, Auclair PL: Atlas of tumor pathology: Tumors of the salivary glands, 3rd ed, Fascicle 17, Washington D.C., AFIP 1996, pp268-281
2. Kocjan C, Milroy C, Fisher EW, Eveson JW : Cytological features of epithelial-myoeplithelial carcinoma of salivary gland : Potential pitfalls in diagnosis. *Cytopathology* 4:173-180, 1993
3. Stewart CJR, Hamilton S, Brown IL, Mackenzie K : Salivary epithelial-myoeplithelial carcinoma : Report of a case misinterpreted as pleomorphic adenoma on fine needle aspiration(FNA). *Cytopathology* 8:203-209, 1997
4. Ng W-K, Choy C, IP P, Shek W-H, Collins RJ : Fine needle aspiration cytology of epithelial-myoeplithelial carcinoma of salivary glands : A report of three cases. *Acta Cytol* 43:675-680, 1999
5. Stewart CJR, Walker E, Mowat A : Fine needle aspiration cytology of epithelial-myoeplithelial carcinoma. *Diagn Cytopathol* 21:363, 1999
6. Firat P, Guler G, Sungur A, Akyol U : Fine-needle aspiration biopsy of epithelial-myoeplithelial carcinoma. *Diagn Cytopathol* 24:224-225, 2001
7. Donath K, Seifert G, Schmitz R : Diagnosis and ultrastructure of the tubular carcinoma of salivary gland ducts. Epithelial-myoeplithelial carcinoma of the intercalated ducts. *Virchows Arch A Pathol Anat* 356:16-31, 1972
8. Yang GCH, Soslow RA : Epithelial-myoeplithelial carcinoma of the parotid : A case of ductal-predominant presentation

- with cytologic, histologic and ultrastructural correlations. *Acta Cytol* 43:1113-1118, 1999
9. Wax T, Layfield LJ : Epithelial-myoepithelial cell carcinoma of the parotid gland: A case report and comparison of cytologic features with other stromal, epithelial, and myoepithelial cell containing lesions of the salivary glands. *Diagn Cytopathol* 14:298-304, 1996
  10. Deere H, Hore I, McDermott N, Levine T : Epithelial-myoepithelial carcinoma of the parotid gland : A case report and review of the cytological and histological features. *J Laryngol Otol* 115:434-436, 2001
  11. Klijanienko J, Vielh P : Fine-needle sampling of salivary gland lesions VII. Cytology and histology correlation of five cases of epithelial-myoepithelial carcinoma. *Diagn Cytopathol* 19:405-409, 1998
  12. 남은숙, 강구, 신형식 : 타액선 상피-근상피세포암종의 세포학적 소견 -1에 보고-. *대한세포병리학회지* 7:64-68, 1996
  13. 권미선, 이승숙, 고재수, 정진행 : 두피에 전이한 상피-근상피암종의 세침흡인 세포학적 소견 -1에 보고-. *대한세포병리학회지* 11:93-97, 2000
  14. Arora VK, Misra K, Bhatia A : Cytomorphologic features of the rare epithelial-myoepithelial carcinoma of the intercalated ducts. *Virchows Arch A Pathol Anat* 356:16-31, 1972
  15. Carrillo R, Poblet E, Rocamora A, Rodriguez-Peralto JL : Epithelial-myoepithelial carcinoma of the salivary gland : Fine needle aspiration cytologic findings. *Acta Cytol* 34:243-247, 1990
  16. Layfield LJ, Glasgow BJ : Aspiration cytology of clear-cell lesions of the parotid gland : Morphologic features and differential diagnosis. *Diagn Cytopathol* 9:705-712, 1993
  17. Orell SR : Diagnostic difficulties in the interpretation of fine needle aspirates of salivary gland lesions : The problem revisited. *Cytopathology* 6:285-300, 1995