

이하선에 생긴 침샘관암의 치험례

박성욱¹ · 강상윤³ · 김태현² · 김정현¹

포천중문 의과대학교 성형외과학교실¹, 병리학교실², 경희대학교 의과대학 성형외과학교실³

A Case Report of Salivary Duct Carcinoma

Sung Wook Park, M.D.¹, Sang Yoon Kang, M.D.³,
Tae Hun Kim, M.D.², Chung Hun Kim, M.D.¹

Department of ¹Plastic and Reconstruction Surgery,
²Pathology, College of Medicine, Pochon Cha University,
Gyeonggi-do, ³Department of Plastic and Reconstruction
Surgery, University of Kyunghee College of Medicine, Seoul,
Korea

Purpose: Salivary duct carcinoma(SDC) is uncommon but high grade adenocarcinoma arising in the ductal epithelium of salivary glands. SDC is characterized by distinctive clinical and pathologic features. The most important histologic aspect of this neoplasm is its resemblance to ductal carcinoma of the breast. Clinically SDC is defined by cervical lymph node involvement and distant metastasis with a high rate of recurrence and mortality. We described some of the clinical and pathological features of SDC and the management using case report for our patient.

Methods: We present a case of a 40-year-old male with 2-year history of a swelling arising in his left preauricular region. There was a single painless, firm and solid 2 × 1.5 cm mass in the left parotid area. Facial nerve function was intact and no cervical lymph node were palpable. In August 2005, we found out 1.7 × 1.8 cm sized cystic, nodular lesions that were located in the superficial lobe of left parotid gland through Computed tomography. And then superficial parotidectomy and postoperative radiation therapy were performed in Jan 2007.

Results: Pathologically, the specimen were consisted of homogeneous, chondroid to myxoid type of tissues. It was yellow mass that has multiloculated cystic lesions. In postoperative PET(Positron emission tomography)

CT, there was no evidence of uptaking FDG(Fluorodeoxyglucose) into the deep layers of parotid gland and distant metastasis were not seen.

Conclusion: Salivary duct carcinoma(SDC) is a rare but high grade adenocarcinoma related to pleomorphic adenocarcinoma. The prognosis of SDC can be different according to the type of tumor such as mucoepidermoid adenocarcinoma, adenoid duct carcinoma and acinar cell carcinoma. So we need to study more carefully for accurate diagnosis in early stage of diagnosis. Although radiotherapy has not yet proven to be a significant factor in overall survival, the combination of parotidectomy and postoperative radiation therapy can lead to more favorable results in treating of SDC.

Key Words: Salivary duct carcinoma, Parotidectomy

I. 서 론

1968년 Kleinsasser 등에 의해 최초로 기술된 침샘관암은 침샘관의 상피세포에서 유래된 고등도(high grade)의 샘암종으로, 이하선에 생기는 암 중에서 6% 이하로 발생빈도가 매우 드문 것으로 알려져 있고, Seifert 등은 4,068례의 침샘에 생기는 암중 단 37례에서 침샘관암을 진단한 바 있다. 유방암의 관세포암종(ductal carcinoma)과 조직학적 소견에서 유사성을 지니며, 판단하기 까다로운 미세흡인 조직검사 결과와 비특이적 형태의 진단 영상검사 결과는 조기 진단과정에서 점액표피암, 선양관암, 선방세포암 등과 혼돈을 가져올 수 있기 때문에 침샘관암의 국소적 확장, 조기전이, 심각한 치사율의 증가와 같은 결과를 초래할 수 있다. 이에 저자들은 이하선에 매우 드물게 발생하는 침샘관암 증례 1례를 경험하였기에 그 임상적, 병리학적 특징 및 효과적 치료방법에 대해 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

II. 증 례

2005년 8월, 45세 남환이 내원 2년 전부터 발생한 좌측 귀 앞쪽의 종괴를 주소로 본원에 내원하였다. 신체검

Received March 21, 2008

Revised May 20, 2008

Accepted June 23, 2008

Address Correspondence: Chung Hun Kim, M.D., Department of Plastic Surgery, Bundang CHA General Hospital, College of Medicine, Pochon CHA university, 351 Yatapdong, Bundang-gu, Sungnam-si, Gyeonggi-do 463-712, Korea. Tel: 031) 780-5280 / Fax: 031) 780-4800 / E-mail: chkimps@cha.ac.kr



Fig. 1. Preoperative view. A 40-year-old male has 2 × 1.5 cm ovoid, firm and solitary nontender mass(center) on the left parotid area.

사 상 종괴의 크기는 2 × 1.5 cm 가량이었으며, 무통성의 딱딱한 단일 종괴였다(Fig. 1). 안면근육의 약화나 마비소견은 보이지 않았으며, 경부 림프절의 종대소견도 보이지 않았다. 2005년 8월에 시행한 안면부 컴퓨터단층촬영상, 좌측이하선의 표층에 존재하는 1.7 × 1.8 cm의 양성부분을 포함하는 결절성 병변소견으로, 환자 추적관찰되지 않던 중 2007년 1월 재시행한 안면부 컴퓨터단층촬영상 2 cm의 양성병변소견을 보였고, 추적관찰 기간 중 크기의 변화는 거의 보이지 않았으며 육안적 소견 상으로도 주목할 만한 변화는 없었다. 2005년 4월부터 IgA 신병증으로 본원 신장내과 치료 중이던 환자로 기저질환에 대한 의학적 평가를 위해 신장내과에 의뢰되었다. 추적관찰 기간 중 병변의 뚜렷한 크기상의 변화가 없고, 림프절 종대소견 역시 보이지 않고 신경과 림프관으로의 원격전이가 흔한 침샘관암의 전형적 임상양상에 비해 비전형적 양상을 보였기에 이하선염(parotitis), 다형성샘종(pleomorphic adenoma) 등의 양성질환과의 감별진단을 위해 2007년 1월경 이하선 천엽 절제술을 시행하였다. 술후 적출된 종괴는 육안상 노란색의 잘 구분된 수많은 방으로 구획 지어진 양성 병변(multiloculated cystic lesion)이었으며 나머지 기질은 노란색의 균일하고 미세한 조직이었다. 조직병리학적 소견은 균일(homogeneous)하고, 연골-점액질(chondroid-myxoid) 양상의 다형성샘종 background에서 특징적인 괴사영역을 보여 침샘관암으로 진단되었다. 수술 직후 시행한 PET CT 상에서

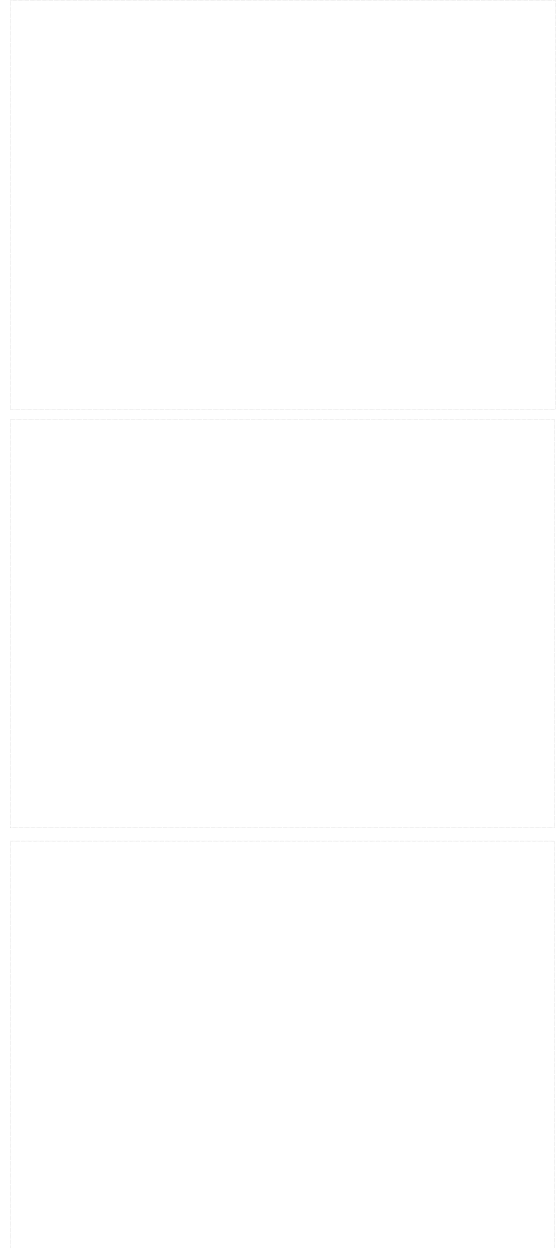


Fig. 2. Microscopic findings of a tumor. (Above) Left part is the normal parotid gland & right part is the tumor (Hematoxylin and eosin stain, ×40). (Center) The tumor shows cribriform, solid and comedonecrotic nest-like growth pattern(×100). (Below) Individual tumor cells are cuboidal to polygonal and have a moderate amount of eosinophilic or amphophilic cytoplasm that may appear finely granular(×200).

이하선 깊은 층으로의 FDG 섭취(uptake)는 없었고 원격전이 소견도 보이지 않았다(Fig. 3). 수술 후 환자는 이하선에 보조적 방사선 치료를 받았으며, 현재까지 재발의 소견은 관찰되지 않았다.

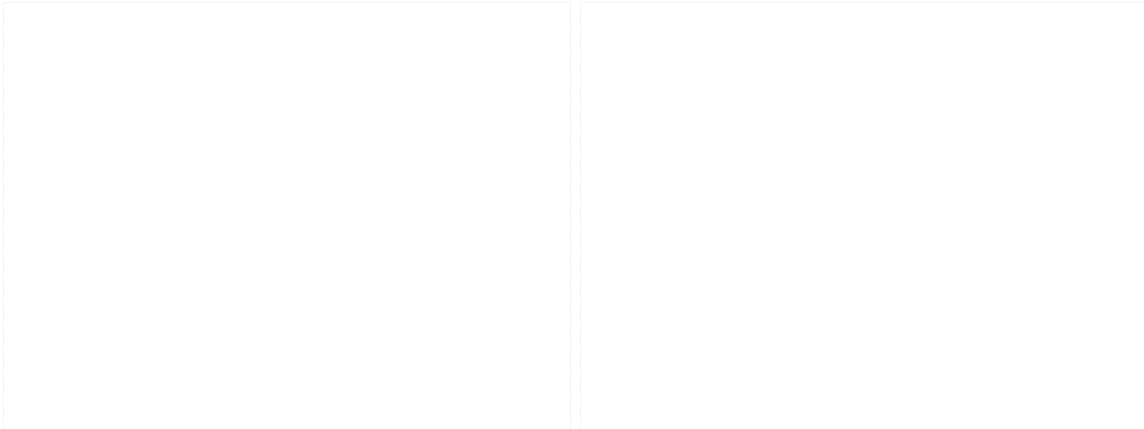


Fig. 3. In postoperative PET(Positron emission tomography) CT, individual bilateral cerebral cortex reveal symmetric glucose metabolism without focal lesion. Both basal ganglia, thalamic and cerebral hemispheres also show well preserved glucose metabolism. Asymmetric FDG uptake is noted at left parotid area and which is consistent with parotid tumor.

III. 고 찰

침샘관은 이하선, 악하선, 설하선의 주타액선과 기도, 부비동을 포함하는 상부 기관, 식도에 산재해 있는 600-1000여개의 작고 독립적인 점액선인 소타액선으로 구분할 수 있다. 타액선에서 발생하는 종양은 전체 두경부 종양의 3-5%를 차지하는데 발생부위 별로는 이하선 85%, 악하선 10-15%, 설하선 및 소타액선 5% 정도로 이하선에서 발생하는 종양이 현저하게 많고, 국내에서는 이보다 좀 더 적은 빈도로 보고되었지만(42-68%),¹ 역시 이하선에 가장 호발하는 것으로 알려져 있다. 이하선의 종양은 80% 정도가 양성종양으로 다른 부위에 비해 양성종양의 발생빈도가 매우 높으며 그 중 혼합종이 가장 많이 보고되어 있다.² 이하선의 종양은 해부학적 위치로 볼 때 하악부의 피하종양으로 나타나므로 피하결절로 나타날 수 있는 여러 가지 종양성 질환을 감별할 필요가 있다. 더구나 혼합종이 Stensen관(이하선관)을 따라서 생기거나 부이하선에서 발생하는 경우에는 볼에서 생길 수도 있으며, 림프절 내부에 봉입된 타액선 조직에서 발생하는 경우에는 목에서 나타나기도 하므로 임상적으로 타액선의 종양을 의심하기 어려울 수 있다.² 침샘관암은 조직학적으로 중심부에 면포괴사(comedonecrosis)를 갖는 고행의 벌집모양(ciribriform)과 유두상(papillary) 등지모양의 종양세포로 특징지어진다. 종양세포는 큰 다각형의 풍부한 호산구성 세포질, 저명한 핵소체, 적은 다형성을 보인다. 세침흡인세포 검사는 침샘에 발생하는 종괴에 대한 효율적이고 가격대비 효과가 뛰어난 진단법이지만,³ 침샘관암의 조직학적 감별진단을 세침흡인 조직검사로 확진하기에는 무리가 있다. 침샘관암은 드물지만

급진적인 조기전이의 양상, 국소적 재발, 높은 사망률과 같은 임상적 특징을 지닌다. 침샘관암 환자는 전형적으로 안면마비와 통증을 동반하는 침샘밖으로 퍼지는 경부선병증(cervical adenopathy)을 흔히 보이지만, 본 증례의 환자는 안면마비와 통증, 경부선병증 소견을 보이지 않았다. Hui 등⁴은 주변 조직으로의 침윤, 림프침범, 림프절 전이, 재발과 원격전이를 포함하는 침샘관암의 불량한 예후에 대해 기술한 바 있다. 하지만 최근의 연구를 통한 통계적 분석결과 림프절 전이, 혈관 및 신경조직으로의 침윤 소견과 임상적 결과간의 상관관계가 없음을 입증했다. 이러한 사실은 빈번한 조기전이와 같은 침샘관암의 급진적 임상양상을 반증한다. 침샘관암의 치료로 가장 흔히 이용되는 치료는 목과 원발부위에 대한 수술과 방사선 병행치료이다. Delgado 등⁵은 작은 종괴의 경우 안면신경을 보존하면서 이하선 전절제술을 시행할 수 있음을 시사한 바 있다. 비록 방사선 요법은 아직 전체 생존에 중요한 치료법으로 입증되진 않았지만, 장기생존자들의 상당수는 수술 후 방사선 치료를 시행받았다.⁶ 종양의 크기는 많은 암의 경우에 있어 중요한 예후인자이다. Hui 등은 3cm 이상의 종양에서 원거리 혹은 림프절 전이가 더 높은 것으로 보고했고, Delgado 등도 2cm 이하 크기의 종양을 가진 환자에서 더 좋은 예후를 확인하였으며, Brandwein 등⁷이 2cm 이상의 종양을 가진 환자에서 좋지 않은 예후를 확인했지만, 침샘관암에서 종양의 크기와 예후 간에는 통계학적으로 유의한 상관관계가 없음이 밝혀졌다. 또한 Lewis 등⁸은 침샘관암의 경우 임상적 예후와 림프절 전이, 혈관이나 주변 신경조직으로의 침윤간에는 통계적 상관관계가 없음을 밝힌 바 있다. 본 증례의 환자는 일차병변에 대한 수술 후, 방사선 치료

를 병행하였고, 이러한 치료는 첫 진단 후 환자의 예후에 영향을 주었으리라 생각된다. 이하선에 발생한 침샘관암은 기존의 다형성 샘종과 연관되어 발생할 수 있으며 종양의 종류에 따라 예후가 현저히 다르고, 악성도가 심하므로 점액표피암, 선양관암, 선방세포암 등과 주의 깊은 감별진단이 필요하며 신경과 림프관으로의 원격전이가 흔한 악성종양이므로 세침흡인생검 등의 사전 진단노력이 요구된다. 치료는 이하선 전절제술과 림프절제술을 병용하는 방법, 이하선 천엽절제술과 림프절제술을 병용하는 방법, 림프절제술 없이 이하선 전절제술 또는 이하선 천엽 절제술만 시행하고 이하선 전절제술 및 보조적 방사선 치료를 병행하는 방법을 들 수 있다. 본 교실에서는 이하선 천엽 절제술과 보조적 방사선 치료를 병행하였으며 이하선에서 발생한 침샘관암의 드문 예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Ahn SJ, Choi JH, Sung KJ, Moon KC, Koh JK: A case of pleomorphic adenoma presenting as a subcutaneous nodule. *Korean J Dermatol* 38: 808, 2000
2. Waldron CA: Mixed tumor(pleomorphic adenoma) and myoepithelioma. In Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR (eds): *Surgical pathology of the salivary glands*. WB Saunders Co., 1991, p 165
3. Frable MA, Frable WJ: Fine-needle aspiration biopsy of salivary glands. *Laryngoscope* 101: 245, 1991
4. Hui KK, Batsakis JG, Luna MA, Mackay B, Byers RM: Salivary duct adenocarcinoma: a high grade malignancy. *J Laryngol Otol* 100: 105, 1986
5. Delgado R, Vuitch F, Albores-Saavedra J: Salivary duct carcinoma. *Cancer* 72: 1503, 1993
6. Afzelius LE, Cameron WR, Svensson C: Salivary duct carcinoma-a clinicopathologic study of 12 cases. *Head Neck Surg* 9: 151, 1987
7. Brandwein MS, Jagirdar J, Patil J, Biller H, Kaneko M: Salivary duct carcinoma(cribriform salivary carcinoma of excretory ducts). A clinicopathologic and immunohistochemical study of 12 cases. *Cancer* 65: 2307, 1990
8. Lewis JE, McKinney BC, Weiland LH, Ferreiro JA, Olsen KD: Salivary duct carcinoma. Clinicopathologic and immunohistochemical review of 26 cases. *Cancer* 77: 223, 1996

1. Ahn SJ, Choi JH, Sung KJ, Moon KC, Koh JK: A case