

## 연구개의 괴사성 타액선 화생 2예

한국원자력의학원 원자력병원 이비인후-두경부외과  
정문상 · 이명철 · 모정아 · 조평산

= Abstract =

### Two Cases of Necrotizing Sialometaplasia of the Soft Palate

Moon Sang Jung, MD, Myung Chul Lee, MD, Jung A Mo, MD, Pyung San Cho, MD  
Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Korea Cancer Center Hospital, Seoul, Korea

Necrotizing sialometaplasia was defined by Abrams et al. in 1973 as a reactive necrotizing inflammatory process involving minor salivary glands. Prior to recognition of necrotizing sialometaplasia as a benign, self-limited lesion, it was all too often diagnosed as either squamous cell carcinoma or mucoepidermoid carcinoma and had been improperly treated because of its clinical and histological resemblance to malignancy. We report two cases of necrotizing sialometaplasia. One case involved a 56-year-old female who developed a necrotizing sialometaplasia in association with palato-pharyngeal flap wound after excision of soft palate cancer and reconstruction. Another case involved a 55-year-old male who had a soft palate mass.

**KEY WORDS** : Necrotizing sialometaplasia · Adenoid cystic carcinoma pleomorphic adenoma.

## 서 론

괴사성 타액선 화생은 Abrams가 조직학적 양상이 점액표피양암종과 유사한 양성 염증성 질환으로 처음 기술하였다.<sup>1)</sup>

괴사성 타액선 화생은 국소적으로 타액선 조직을 파괴하는 염증성 질환으로 발병 4~10주내에 자연치유되는 양성 질환이다. 임상적으로 심부 궤양형태로 나타나며, 비궤양성 종창이나 종괴로 나타날 수도 있다.<sup>1-3)</sup> 이는 임상적, 조직학적으로 악성종양과 유사하여 불필요한 외과적 수술이 시행될 수 있으므로 철저한 감별 진단이 요구된다.<sup>1-4)</sup>

타액선 조직의 허혈이 괴사성 타액선 화생의 원인이라 생각된다.<sup>5)</sup> Brannon 등<sup>5)</sup>은 69례를 임상병리학적으로 분석한 결과, 남성에서 호발하였고, 69.6%가 경구개의 소타액선과 10.1%가 주타액선에 발생하였다. 그외 하순, 하악구치, 구치 후방, 은협이행부, 비강, 상악동, 후두 등에서도 발생하

였다고 보고하였다. 원인으로는 주로 외상, 동맥경화 및 국소적 혈관염이 원인으로 생각되고 있다.<sup>4-10)</sup> Anneroth 등<sup>6)</sup>은 10년간 10,414개의 구강악안면 영역의 조직병리검사 결과상 3중례를 괴사성 타액선 화생으로 진단하였으며, 발병율은 0.03%라고 보고하였다.

본 저자들은 본원에서 2007~2009년 동안 괴사성 타액선 화생으로 진단된 2중례를 보고하고자 한다.

## 증 례

### 1. 중례 1

56세 여자로 연구개 중앙부위의 2cm가량의 종괴 및 목의 이물감 증세를 주소로 본원 내원하였다. 임상검사상 연구개의 중앙 부위에 2cm가량의 종괴가 관찰되었으며 표면은 4곳 가량의 소궤양이 동반되었으며 압통은 없었다. 환자의 과거 병력상 특이소견은 없었다. 내원 3일전부터 연구개의 종괴 발생을 알게 되었다.

비인두 MRI상 연구개의 23×19×13mm 종괴가 관찰되었고 주변 연부조직으로의 침범은 없었으며, 이외 특이소견은 관찰되지 않았다. 구개부에 발생한 연구개암 의심하에 정

교신저자 : 이명철, 139-706 서울 노원구 공릉2동 215-4  
한국원자력의학원 원자력병원 이비인후-두경부외과  
전화 : (02) 970-2173 · 전송 : (02) 970-2450  
E-mail : lmc@hanmail.net

확한 진단을 위하여 연구개 종괴내 4곳의 궤양부분에서 편지 생검을 시행하였다. 생검결과 다형성 선종 또는 선양 양성암종 가능성을 지닌 소타액선 종양으로 확인되었다. 2개월 후 전신마취하에 동결절편검사를 통한 종양의 잔존 여부 판단하에 종괴 주위의 연구개 광범위 절제술 시행 및 연구개 결손부위 재건을 위하여 후인두 벽을 이용한 피판 재건술 시행하였다. 조직 검사결과 연구개에 발생한 선양 양성암으로 진단되었다. 수술후 입원중 경과관찰중에 연구개와 후인두벽 봉합부위의 열개로 인하여 종괴 제거수술 20일 후 연구개와 후인두벽 봉합부위의 상측과 우측 연에서 생검 시행후 봉합하였다. 조직검사결과상 가성상피증식을 나타내는 피사성 타액선 화생이 추가 진단되었다. 그 후 절제연 안전이 확인되어 추가적 방사선 치료 6,000cGy 시행하였다. 이후 경과관찰상 수술 병소 및 봉합부위는 치유되었고, 절제수술후 1년이 지난 현재 연구개의 선양양성암 및 피사성 타액선 화생은 재발되지 않고 있다.

## 2. 증례 2

55세 남자로서 내원 10일전부터 발생한 구강내 통증과 이물감을 주소로 본원 이비인후과에 내원하였다. 임상검사상 구개수에서 유두상 종괴가 관찰되었으며, 연구개부 점막내에서도 육안상으로는 관찰되지 않으면서 구개수 종괴와 접해 있는 종괴가 만져졌다. 외래에서 전 종괴를 절제하는 것은 무리할 것으로 판단되어 일단 국소마취하에 구개수 종괴 절제술만 시행하였다. 생검결과 다형성 선종으로 확인되어 10일 후 전신 마취하에 연구개 점막내 종괴에 대한 추가 절제술 시행하였다. 종괴는 연구개 내에서 점막 침범 소견 없이 깨끗한 연을 가진 종괴가 확인되었으며, 서로 분리된 3개의 종괴를 제거한 후 연구개 점막을 일차 봉합하였다. 조직검사결과 점막하 만성 염증세포의 침윤을 갖으며 가성상피 증식을 보이는 피사성 타액선 화생으로 진단되었다(Fig. 1). 그

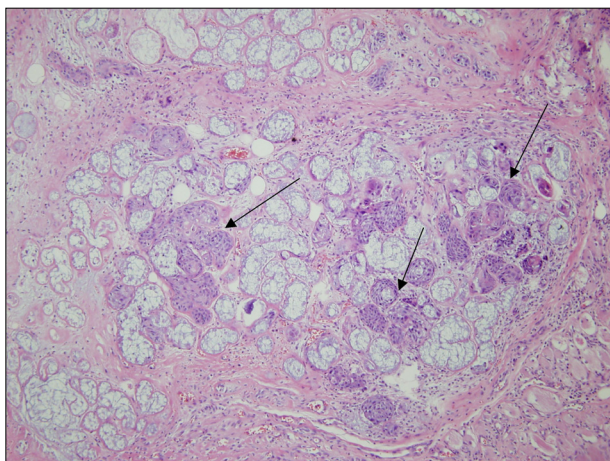


Fig. 1. Salivary duct system exhibits squamous metaplasia (arrows) (H & E,  $\times 100$ ).

후 특별한 처치없이 병소는 치유되었고, 재발없이 경과관찰 중이다.

## 고 찰

악성종양의 외과적 수술, 구강내 국소마취 주사, 잘 맞지 않은 보철물등이 국소적 혈류장애, 허혈성 괴사, 경색을 유발하여 피사성 타액선 화생을 발생시킬수 있다.<sup>6)</sup> 그러나 환자에 따라서는 외상의 병력없이 발생하는 경우도 있다.<sup>6)</sup> 또한 동반되어 있는 종양이나 낭에 의한 주위조직의 압박으로 혈관의 허혈을 일으켜 피사성 타액선 화생을 발생시킬수도 있다.<sup>2)</sup>

Anneroth 등<sup>6)</sup>은 피사성 타액선 화생의 병인 과정을 경색, 정체, 궤양, 회복, 치유기 등 5단계로 명시하였으며, Brannon 등<sup>5)</sup>은 타액선 괴사는 경색기에 보이며, 궤양의 치유기에 위상피성 증식을 나타낸다고 기술하였다.

피사성 타액선 화생은 조직의 형태가 점막 하 조직의 만성 염증세포의 침윤을 갖는 국소적 괴사와 함께 편평화생의 소견을 보이나, 선조직으로 침윤한 표면상피 기원의 편평상피암종 또는 구강 점막상피로 이행된 선조직 기원의 점액표피양암종과 유사하다.<sup>1)</sup>

피사성 타액선화생의 임상양상은 다양하다. 전형적 임상양상으로는 구개부의 1~3cm가량의 궤양을 보일수 있으나 초기에는 정상 점막으로 덮인 종창의 형태로 나타나기도 하는데 지속기간은 대개 2주 정도이다.<sup>6)</sup>

신체검진상 후방경구개 부위에 궤양없이 단단하고 반구형이며, 무통성의 부종이 비염증성이라고 판단되면 대개 소타액선에서 기인한 질환의 가능성을 생각해야하며, 이는 양성 혼합종양, 선양양성암종, 피사성 타액선 화생 등을 고려하여야 한다.<sup>7)</sup> Rizkalla와 Toner는 편평상피암종과 점액표피양암종 등의 악성종양과 피사성 타액선 화생의 감별진단 방법으로 면역조직화학적 방법을 연구하였다.<sup>11)</sup> Calponin, S100, smooth muscle actin(SMA), p63, cytokeratin 7, cytokeratin 5, cytokeratin 6 등의 표식자가 사용되었으며, 표식자를 통한 상피 조직에 남아 있는 근상피 세포를 관찰하여 악성 종양과 피사성 타액선 화생을 감별하는 한가지 방법으로 제시하였다.<sup>11)</sup> 또한 Ferina는 MRI상 피사성 타액선 화생이 양성 종괴 소견을 보이는 점과 조영증강되지 않는 특징을 타액선 암과의 감별진단 소견으로 제시하기도 하였다.<sup>12)</sup>

본 증례 1에서는 구개에 발생한 선양양포암 진단하에 연구개 절제술 및 인두 후벽을 이용한 피판술 시행한 예로 수술 후 20일정도 경과후에 피판과 연구개 사이의 봉합부위에서 피사성 타액선염이 발생하였다. 본 저자들은 상기 환자의 피사성 타액선염의 발생원인으로 수술 전 선양양포암

및 괴사성 타액선 화생이 동반되어 있었을 가능성을 완전히 배제할 수는 없다. 하지만 최초 진단시 종괴내의 4곳에서 무작위 편치 생검에서 모두 괴사성 타액선 화생을 시사하는 소견이 없었고, 술전 시행한 MRI 소견에서도 괴사성 타액선 화생을 시사할 만한 소견이 전혀 없었다. 또한 수술 후 병리 조직검사결과상 절제된 연구개 병변은 2.8×1.8×1.5cm 이었으며, 절제 병변의 대부분이 종양 병변이었다. 절제된 병변에서 종양세포 이외의 편평상피화생, 가성상피증식 등을 나타내는 괴사성 타액선 화생의 동반 소견은 확인할 수 없었던 점으로 미루어 볼 때, 첫번째 외과적 수술로 인한 국소적 혈류장애 또는 종양의 주위조직 압박으로 인한 혈관의 허혈로 인하여 이차적으로 괴사성 타액선염이 발생하였으리라 판단하고 있다.

본 증례 2에서는 생검상 혼합성 선종으로 확인된 구개수의 유두상 종괴와 접하여 구개수 직상방의 연구개의 비강쪽 점막내에서도 유사한 종괴가 축진된 바, 임상적으로 판단할 때, 연구개 부위의 종괴도 구개수 종괴와 동일한 병리 소견을 가졌을 것으로 생각되었다. 또한 축진된 종괴가 크지 않고 경계가 명확하여 추가적인 MRI 등의 영상학적 검사는 시행하지 않았다. 이후 완전절제를 위하여 추가적으로 전신 마취하에 연구개내 종괴 절제술을 시행하였다.

괴사성 타액선 화생의 발생원인으로는 구개수 종괴의 국소마취하 절제로 인한 발생가능성을 배제할 수는 없으나 최초 진단 당시부터 연구개 점막내에서 축진되었던 종괴였던 점으로 미루어 보아 혼합성 선종과 괴사성 타액선 화생이 공존했을 것으로 판단된다. 초기 구개수 종양 절제술 시행시 연구개내에서 축진되었던 종괴의 추가적 생검을 시행하였다면 수술전 구개수 부위의 다형성 선종 진단 이외, 괴사성 타액선 화생도 추가 진단되었을 것으로 판단된다.

두 증례 모두 조직학적 소견으로 타액선 관과 엽의 염증세포 침윤 및 육아조직 형성 반응을 동반한 편평상피 화생을 보여 전형적인 괴사성 타액선 화생으로 진단할 수 있었다.<sup>5)</sup>

괴사성 타액선화생은 임상적으로나 조직학적으로 편평상피암종이나 점액표피양암종과 유사하나 자연히 치유될 수 있다.<sup>2)</sup> 그러므로 수술전 정확한 생검을 통한 조직소견으로 괴사성 타액선 화생 병변에 대한 불필요한 광범위 외과적 치료를 피해야 한다.<sup>1-4)</sup>

본 증례에서 종양(선양 낭포암종, 혼합성 선종)과 괴사성

타액선 화생이 수술전 공존하였다면, 수술전 종괴와 주위조직에 대한 충분한 조직검사를 통해 광범위 절제를 피할수도 있었으리라 생각된다. 하지만, 본 증례처럼 종양 절제술 후 재발이나 잔여 병변이 의심되는 경우나 다른 종양과 공존하는 경우에는 광범위 수술적 치료는 아니더라도 최소한 의심되는 부분을 완전히 절제하여 확인하는 것이 안전하다고 판단된다.

**중심 단어 :** 괴사성 타액선 화생 · 침샘종양.

## References

- 1) Abrams AM, Merlose RJ, Howell FV. *Necrotizing sialometaplasia: A disease simulating malignancy. Cancer. 1973;32:130-135.*
- 2) Imbery TA, Edwards PA. *Necrotizing sialometaplasia: Literature review case reports. J Am Dent Assoc. 1996;127:1087-1092.*
- 3) Mesa ML, Gertler RS, Schneider LC. *Necrotizing sialometaplasia: Frequency of histologic misdiagnosis. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1984;57:71-73.*
- 4) Dunlap CL, Barker BF. *Necrotizing sialometaplasia: Report of five additional cases. J Oral Surg. 1974;37:722-727.*
- 5) Brannon RB, Fowler CB, Hartman KS. *Necrotizing sialometaplasia: A clinicopathologic study and review of the literature. Oral Surg. 1991;72:317-325.*
- 6) Anneroth G, Hansen LS. *Necrotizing sialometaplasia: The relationship of its pathogenesis to its clinical characteristics. Int J Oral Surg. 1982;11:283-291.*
- 7) Corell RW, Wescott WB, Pierce GL. *Asymptomatic, nonulcerated swelling of the posterior hard palate. J Am Dent Assoc. 1982;105:512-513.*
- 8) Alzim A, Allam HI. *Necrotizing Sialometaplasia of Parotid gland. Tanta Medical Sciences Journal. 2007;2 (1):173-175.*
- 9) Lee JS, Kang BC. *A case of necrotizing sialometaplasia. Korean J Oral Maxillofac Radiol. 2005;35:175-178.*
- 10) Nah KS, Cho BH, Jung YH. *Necrotizing sialometaplasia: Report of 2 cases. Korean J Oral Maxillofac Radiol. 2006;36:207-209.*
- 11) Rizkalla H, Torner M. *Necrotizing sialometaplasia versus invasive carcinoma of the head and neck: The use of myoepithelial markers and keratin subtypes as an adjunct to diagnosis. Histo-pathology. 2007;51 (2):184-189.*
- 12) Farina D, Gavazzi E, Avigo C, Borghesi A, Maroldi R. *MRI findings of necrotizing sialometaplasia. Br J Radiol. 2008;81 (966):173-175.*