

이하선에 발생한 기저세포선종의 치험례

이주철¹ · 박은수¹ ·곽정자²

순천향대학교 의과대학 ¹성형외과학교실, ²병리학교실

A Case of Basal Cell Adenoma in the Parotid Gland

Joo Chul Lee¹, Eun Soo Park¹, Jeong Ja Kwak²

Departments of ¹Plastic and Reconstructive Surgery and ²Pathology, Soonchunhyang University Bucheon Hospital, Soonchunhyang University College of Medicine, Bucheon, Korea

Purpose: Basal cell adenoma of the salivary gland is an uncommon type of monomorphic adenoma. The most frequent location is parotid gland. It usually appears as a firm, mobile and slow-growing mass. Originally the term "basal cell adenoma" is described as a benign salivary gland tumor comprised of uniform appearing basaloid cells which are arranged in solid, trabecular, tubular, and membranous patterns. But the myxoid and chondroid mesenchymal like component as seen in pleomorphic adenoma is lacking in basal cell adenoma. We report a case of basal cell adenoma of parotid gland with review of the literatures.

Methods: The 59-year-old female patient was referred to our department with a painless palpable mass in the left preauricular region for about 1 year. Movable and nontender subcutaneous mass was palpable. There was no evidence of cervical metastasis in computed tomography and ultrasonography. On fine needle aspiration cytology, pleomorphic adenoma was suspected. Under general anesthesia, superficial parotidectomy including tumor was performed. The biopsy result was basal cell adenoma.

Results: Long-term follow-up for 54 months showed favorable result without evidence of recurrence except for temporary facial nerve weakness right after the surgery.

Conclusion: Basal cell adenoma is the third most frequent benign tumor of the salivary gland, following pleomorphic adenoma and Warthin's tumor, although the incidence is low. The typical clinical feature of the basal cell adenoma is slowly growing, asymptomatic, and freely movable parotid mass. Basal cell adenoma should be also considered as a differential diagnosis of the parotid gland benign tumor.

Keywords: Adenoma, Parotid neoplasms

서 론

이하선의 기저세포선종은 전체 타액선 종양 중 2%의 발생빈도를 보이는 드문 질환으로 다형선종(pleomorphic adenoma)과는 다르게 기질성분이 없이 기저세포들이 규칙적인 배열을 보이면서 증식하는 양성 상피종양이다.

1967년 Kleinsasser와 Klein에 의해 처음 기술되었으며, 1972년 세계보건기구(World Health Organization)의 타액선 종양 분류에서는 독립된 종양으로 분류되지 않고 다른 종양과 함께 단형선종(monomorphic adenoma)으로 분류되어 있었으나 최근에 기저세포선종(basal cell adenoma)은 독립되어 분류된 비교적 드문 종양이다.¹ 이 종양은 대부분 예후가 좋은 편이지만 막형(membranous type)에서는 재발이 잘되는 것으로 알려져 있다. 가장 호발하는 부위는 이하선(귀밑샘)이고, 그 외에 윗입술, 구강 점막, 아랫입술, 구개 및 코중격에서도 드물게 발생하였다.² 우리나라에서도 1987년 Choi 등³이 타액선에서 발생한 기저세포선종 2례를

Correspondence: Eun Soo Park
Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Soonchunhyang University Bucheon Hospital, Soonchunhyang University College of Medicine, 170 Jomaru-ro, Wonmi-gu, Bucheon 420-767, Korea
Tel: +82-32-621-5319 / Fax: +82-32-621-5016 / E-mail: peunsoo@schmc.ac.kr

Received September 20, 2012 / Revised September 28, 2012
Accepted October 2, 2012

보고하였고, Hwang 등⁴은 부인두 공간에서 발생한 예를 보고한 바가 있다. 역학적으로 40-60대 연령에서 호발하며, 여성에서 더 호발하는 것으로 보고된다. 임상적인 소견은 다형성 선종과 비슷하지만 조직학적으로 다형선종 또는 선낭암종(adenoid cystic carcinoma)과 감별이 어려운 점이 문제가 되기도 한다. 저자들은 이하선 좌측 천엽에 발생한 기저세포선종 1례에 대하여 종양을 포함한 이하선 천엽절제술을 시행하고 장기간 추적관찰상 양호한 결과를 얻었던 치험례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중 례

59세 여자 환자가 내원 약 1년 전부터 좌측 귓볼 앞쪽 부위에 서서히 커지면서 1.5 × 1.5 cm 크기로 만져지는 무통성의 종괴를 주소로 내원하였다. 촉진 시 피부가 약간 융기되어 있으며 가동성의 피하 종물이 감지되었다. 압통 및 안면신경마비 소견은 없었다.

촉지되는 종괴는 초음파검사상 좌측 이하선 천엽에 분엽된 경계(lobulated margin)를 가지는 저반향 고형(hypoechoic solid)이며 크기는 약 1.1 × 0.7 cm 정도였다.

컴퓨터단층촬영(computed tomography, CT)상 역시 좌측 이하선 천엽 상부에 분엽된 경계를 가지며 조영증강이 잘되는 고형 종괴가 관찰되었고, 이 종괴의 내부에 비정상

적 밀도(abnormal density)는 보이지 않았으며 그 외 기도나 갑상선에 이상 소견은 없었다(Fig. 1). 다형선종보다는 점액표피양 암종(mucoepidermoid carcinoma)이나 선낭암종과 같은 악성 종양의 가능성의 유무와 감별진단을 위해 세침흡인세포검사를 시행하였다.

세침흡인세포검사상 병리학적 소견은 비교적 크기가 작고 균일한 크기의 상피세포들이 느슨한 군집을 이루며 세포의 이형성은 없었고 세포분열도 관찰되지 않아 양성 상피종양의 소견을 보이고 있었다.

수술적 치료를 위해 전신마취하에 귀 앞쪽에 완만한 'S'자 절개를 가하고 전방접근법으로 이하선의 앞쪽까지 박리한 후 이하선관과 안면신경의 분지들을 확인하면서 안면신경의 분지로부터 이하선을 박리하여 종양을 포함한 이하선 천엽의 적출을 시행하였다(Fig. 2).⁵

절제된 이하선 천엽의 크기는 약 7 × 3.6 × 1.2 cm였고, 여러 횡단면상에서 1.4 × 1.0 cm 크기의 비교적 경계가 분명한 난원형(ovoid) 종양이 관찰되었다. 절단 표면은 출혈이나 괴사 없이 분엽화(lobulated)되고 약간 흰 빛깔을 나타냈으며 종괴는 섬유성 피막으로 싸여있었다. 동결절편검사상 양성, 단형선종으로 진단되었다.

병리조직 진단에서 주변 정상 타액선과는 섬유성 피막에 의해 경계가 잘 지어지는 고형 종괴로 분엽상을 보이고 있었으며 낭성변화나 석회화는 관찰되지 않았다. 고배율에



Fig. 1. (Left) Axial computed tomography (CT) showed a solid mass in superficial lobe of the left parotid gland. (Center) Coronal CT showed a lobulated, well-defined, homogeneously enhancing lesion in the superficial region of the left parotid superficial lobe. (Right) The tumor was well-defined and lobulated with heterogenous, hypoechoic properties on ultrasonography.

서 균일한 기저세포들이 조밀하게 증식하여 종양을 형성하고 있었으며 다양한 크기의 관형구조를 이루고 있고 또한 종양세포들이 고형성으로 증식한 부분도 관찰되어 관형과 고형성이 함께 관찰되는 기저세포선종(tubular and solid basal cell adenoma)의 소견을 보였다. 종양세포의 대부분은 크고, 연하게 염색되는 핵을 가지고 있었고 세포군집의 변연부에 있는 일부 종양세포는 작고 진한 핵을 가지고 있었으며 세포의 이형성이나 세포분열은 관찰되지 않았다(Figs. 3-5).



Fig. 2. A 59-year-old female with basal cell adenoma on the left preauricular region. The design of preoperative incision line.

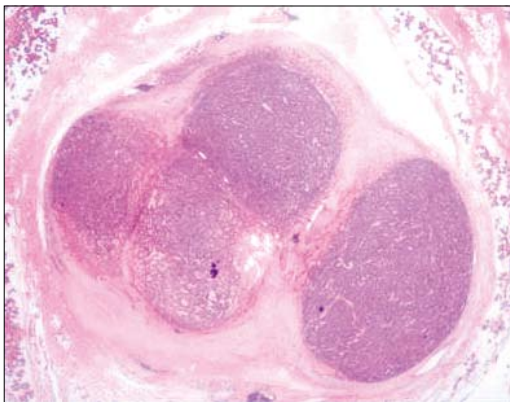


Fig. 3. Lower power field view showed a well circumscribed solid nodular tumor with thick fibrous capsule and adjacent normal salivary tissue (H&E, ×10).

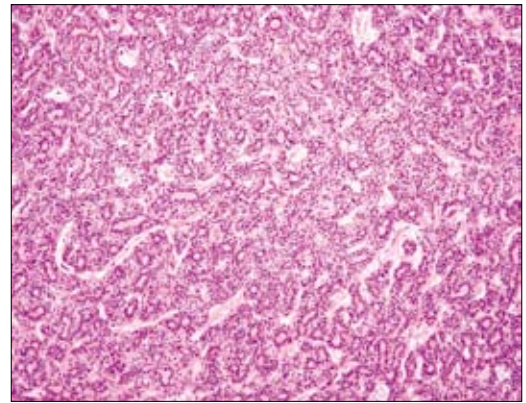


Fig. 4. The tumor was composed of basaloid cells with variable sized tubular structures (H&E, ×100).

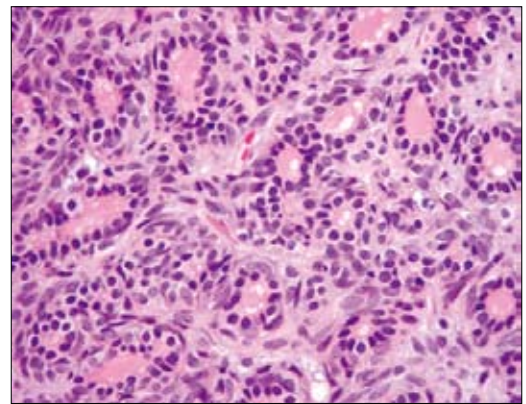


Fig. 5. The tubules are lined by basaloid cells with bland looking nuclei and are filled with amorphous eosinophilic material (H&E, ×200).

수술 직후 좌측 안면신경 하악분지의 일시적 약화 소견이 관찰되었으나 약 1개월 후 호전되었고 수술 후 54개월간의 추적조사상 종양의 재발은 없으며, 다른 합병증은 관찰되지 않았다.

고 찰

기저세포선종은 단형선종의 아형으로 분류되는 흔하지 않은 종양으로 대부분이 이하선에서 발생한다. 또한 기저세포선종은 그 발생이 다형선종과 와르틴종양(Warthin's tumor)에 비해 매우 드물지만 이하선 양성 종양 중에서 이들 종양에 이어 세 번째로 흔한 것으로 보고된다.⁶ 이전에는 'monomorphic adenoma'로 통칭되었으나 1991년 세계보건기구에

서 세부적으로 분류하였다. 기저세포선종은 타액선 종양의 약 2% 가량을 차지하며 여자에게서 호발하는 것으로 나타나 있다.⁶

조직학적 특징으로 기질 성분이 관찰되지 않고, 균일하고 규칙적인 기저세포양 세포들이 존재하며 이 세포들은 두 가지 형태로 섞여 존재한다. 한 형태는 종양 가장자리 부위에 위치한 세포질이 적으며 둥근 핵이 조밀한 작은 기저세포양 세포들로 구성된 형태이고, 다른 한 형태는 중심부에 위치한 세포질이 풍부하고 핵이 엷은 큰 세포들로 구성된 형태이다. 2005년 세계보건기구에 의한 분류에서 조직학적으로 이 종양을 네 가지 아형, 즉 고형, 지주형, 관상형, 막성으로 세부적으로 분류하였다.² 고형의 경우 촘촘하게 배열된 작은 세포들로 형성되어 있고, 지주형과 관상형의 경우 좁은 밴드와 관 구조로 배치되거나 혼합되어 있으며, 막성은 치밀한 유리질화한 바닥막과 외부 세포에 의해 울타리가 처진 형태로 구성되어 있다. 고형이 가장 많은 형이나, 종양은 이 여러 형태들이 조합된 형태를 보일 수 있다. 모든 아형이 양성 변화, 비늘 모양의 소용돌이 무늬(squamous whorls), 완전한 각질화(frunk keratinization), 혹은 드물게 소공질 모양(cribriform) 형식을 보일 수 있다. 본 증례에서는 고형 형태로 H&E염색(hematoxylin and eosin stain)상 저배율($\times 50$)에서는 두꺼운 섬유성 피막으로 잘 경계 지어지는 고형 결절로 보였고, $\times 100$ 배율상에서 다양한 크기의 관 모양 구조를 가진 기저양 종양세포로 구성되어 있으며, 고배율($\times 200$)에서는 정상적 핵을 가진 기저세포들로 싸여 있으며, 무정형 호산성 물질(amorphous eosinophilic material)이 그 안에 차있는 세관들(tubules)이 관찰되는 전형적인 기저세포선종의 병리조직 소견이었다.

임상적으로 기저세포선종은 막성의 경우를 제외하고 대부분 작고(최대 직경 3cm를 초과하지 않는), 잘 경계 지어지는 피막에 싸인 유동성의 종양으로 나타난다. 종종 압통이나 통증 없이 천천히 성장하여 수개월에서 수년간 동안 환자가 인지하지 못할 수 있으며 대부분의 종양은 이하선의 천엽에 위치한다. 일반적으로 얼굴 신경의 침범은 없다.⁷

CT 소견이 다른 종양으로부터 기저세포선종을 감별하는 데에 특징적이라 할 수는 없지만 Shi 등⁸은 CT와 초음파를 이용한 연구에서 기저세포선종의 크기가 더 작을수록 피부에 가깝게 즉, 얇은 위치 있는 경향이 있으며 조영 후 초기에 강한 조영증강을 보인다는 점이 진단에 도움이 되

고 대부분 이하선의 상부에 위치하는 것으로 보고하였다. 본 증례에서 조영증강 후의 CT 소견은 이하선 천엽 내 강한 조영증강을 보이는 결절이 나타났으며 종괴의 종류를 확진할 만한 특징적인 소견은 없었다. 그러나 이하선 천엽 내 상부에 존재하는 것을 확인할 수 있었으며, CT 영상이 종양의 범위 및 주위 구조물과의 관계를 결정하는 데에 중요한 역할을 하여 수술적 치료 시 도움이 될 수 있었다.

또 기저세포선종은 다형선종, 선낭암종, 기저세포선암, 기저상피세포암 등과 감별진단이 필요하다.¹ 특히 수술 전 조직학적 진단 및 악성 종양 여부를 감별하기 위한 방법으로 세침흡인세포검사를 시행할 수 있다. 본 증례에서도 수술 전 시행한 세침흡인세포검사상 양성 종양으로 생각되었으나 기저세포선종으로 진단되지는 못하였다. 생검의 양이나 위치적 문제, 또 발생 빈도가 드문 관계로 기저세포선종이 잘 고려되지 않은 것으로 생각된다. 특히 Paik 등⁹이 수술 전 세침흡인세포검사와 병리조직학적 진단이 확진된 66례와 수술 중 동결 절편 생검을 시행한 49례를 대상으로 한 연구결과 병리조직학적으로 확인된 기저세포선종은 총 4례였으나, 세침흡인세포검사에서 정확히 진단된 경우는 1례, 다른 양성 종양으로 진단된 경우 2례, 악성종양으로 진단된 경우는 1례, 또 동결절편생검을 함께 시행했던 3례 중 2례는 다형선종으로 잘못 진단되었으며, 1례에서 기저세포선종으로 정확히 진단되어, 결론적으로 세침흡인세포검사와 동결절편생검 모두에서 주로 오진된 양성 종양으로 기저세포선종을 보고하였다.

이하선에 발생한 기저세포선종의 치료는 다른 타액선 종양에서와 마찬가지로 부분적 천엽절제술, 전천엽절제술, 부분적 천엽 및 심엽절제술, 이하선 전절제술, 선택적 심엽절제술을 시행할 수 있다. 이하선 심엽에 위치한 종양에 대해서는 이하선 전절제술 혹은 선택적 심엽절제술이 자주 시행된다. 특히 막형의 경우는 전절제술을 권하고, 작은 침샘에서 기원한 경우 피막외 절제를 시행할 수 있다. 흔히 발생하는 합병증으로 일시적 혹은 영구적 안면신경 마비, Frey 증후군, 타액 누관, 함몰변형으로 인한 미용적 문제, 대이개 감각 신경 손상으로 인한 귀 주위 완전 무감각증 등이 있다. 기저세포선종의 예후는 악성화 변화나 국소 및 원격 전이가 매우 드물어 대개 좋은 편이나, 막형에서 재발률이 25%에 달한다.¹⁰ 본 증례에서는 고형의 형태였으며 54개월의 경과관찰에도 재발하지 않았으며 수술 직후 일시적

안면신경의 하악지의 약화 외에는 특별한 합병증은 없었다. 결론적으로 본 증례와 같이 기저세포선종을 CT나 초음파만으로 감별 진단하기는 어렵고, 세침흡인세포검사를 시행하여도 항상 정확히 진단되지 않을 수 있으므로 중년 이후 여성에서 서서히 발생하는 등의 임상적 경과를 보이는 이하선 양성 종양의 경우 진단 시 다형선종이나 와르틴종양 외에도 드물지만 기저세포선종을 함께 고려해야 하겠다. 특히, 병리조직학적으로 막성의 경우 재발률이 높아 이하선의 전절제술이 추천이 된다. 또한 이하선 내 종양의 위치에 따라 수술 범위가 다를 수 있지만 기저세포선종의 경우 싸고 있는 피막이 파괴되는 경우 전이될 수 있으므로 적절한 수술적 치료와 장기간 추적관찰이 필요하다.

REFERENCES

- Gonzalez-Garcia R, Nam-Cha SH, Munoz-Guerra MF, Gamallo-Amat C: Basal cell adenoma of the parotid gland: case report and review of the literature. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 11: E206, 2006
- Gupta N, Jadhav K, Ahmed MB, Amberkar VS: Basal cell adenoma in a relatively rare site. *J Oral Maxillofac Pathol* 13: 101, 2009
- Choi IS, Park CS, Kim CK: Basal cell adenoma of the parotid gland. *Korean J Head Neck Oncol* 3: 91, 1987
- Hwang SB, Chung GH, Kim CS: Basal cell adenoma presenting as a parapharyngeal space mass: a case report. *J Korean Radiol Soc* 56: 439, 2007
- Rho BI, Tak MS, Lee YM, Yang SJ: Conservative parotidectomy by the anterior approach. *J Korean Soc Plast Reconstr Surg* 24: 306, 1997
- Kawata R, Yoshimura K, Lee K, Araki M, Takenaka H, Tsuji M: Basal cell adenoma of the parotid gland: a clinicopathological study of nine cases: basal cell adenoma versus pleomorphic adenoma and Warthin's tumor. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 267: 779, 2010
- Yang XJ Jr, Yang C, Chen MJ, Zhang XH, Qiu YT, He DM, Wang LZ: Preauricular transcondylar approach for basal cell adenoma of parotid coexist with ganglion cyst of the ipsilateral temporomandibular joint. *J Craniofac Surg* 22: e23, 2011
- Shi L, Wang YX, Yu C, Zhao F, Kuang PD, Shao GL: CT and ultrasound features of basal cell adenoma of the parotid gland: a report of 22 cases with pathologic correlation. *AJNR Am J Neuroradiol* 33: 434, 2012
- Paik I, Lee HK, Lee YD: The role of fine needle aspiration cytology of salivary gland tumors. *J Korean Surg Soc* 57: 533, 1999
- Yu GY, Ubrmuller J, Donath K: Membranous basal cell adenoma of the salivary gland: a clinicopathologic study of 12 cases. *Acta Otolaryngol* 118: 588, 1998