

양성 종양으로 오인된 낭선암종 1례

황소민 · 이종서 · 김형도 · 정용휘 · 김홍일

좋은문화병원 미용성형재건센터

A Case of Cystadenocarcinoma Misdiagnosed as a Benign Tumor

So-Min Hwang, Jong Seo Lee, Hyung Do Kim, Yong Hui Jung, Hong Il Kim

Aesthetic, Plastic and Reconstructive Surgery Center, Good Moonhwa Hospital, Busan, Korea

Cystadenocarcinoma of the salivary gland is a rare malignant tumor. It was first defined as papillary cystadenocarcinoma in the 1991 World Health Organization (WHO) classification, and it was reclassified as cystadenocarcinoma in the 2005 WHO classification. It is a low-grade neoplasm that features slow growing and predominantly cystic growth. We report a case of cystadenocarcinoma occurring on the parotid gland of a 61-year-old female patient presenting palpable mass on her left cheek. Preoperative examination may not reveal typical malignant characteristics. Such as in our case, the differential diagnosis between cystadenocarcinoma and benign lesion is difficult occasionally. We discuss the clinical and histopathological features of cystadenocarcinoma with the review of the literature.

Keywords: Cystadenocarcinoma / Parotid gland / Salivary glands

서 론

타액선의 악성 종양은 두경부 악성 종양에서 5% 미만을 차지하며, 전체 악성 종양 중에서도 1% 미만의 드문 종양이다[1]. 그 중 낭선암종(cystadenocarcinoma)은 타액선 종양 중에서도 발생률이 낮은 저악성도 종양이다. 낭선암종은 1991년 World Health Organization (WHO)의 타액선 종양 분류법에 의해 유두상 낭선암종(papillary cystadenocarcinoma)으로 처음 분류되기 시작하였으며, 2005년에 낭선암종으로 다시 재분류되었다. 주타액선에서 주로 발생하며 대부분이 이하선에서 발생하는 것으로 알려져 있다. 양성 성장이 현저하게 관찰되며, 양성 성장을 하는 다른 타액선 종양들의 특

징이 없을 때 배제적 진단(diagnosis of exclusion)을 통하여 진단할 수 있다[2].

저자들의 문헌고찰에 따르면 국내에서 보고된 낭선암종은 총 4개의 사례가 보고되어 있으나 이하선에 발생한 사례는 아직 보고된 바가 없었다[3-6]. 저자들은 61세 여자환자에서 좌측 이하선에 발생한 낭선암종 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

61세의 여자환자가 좌측 협부의 종물감을 주소로 내원하였다. 수 개월 전부터 종물을 인지하였으며 서서히 자라는 양상이었다. 과거력 및 가족력상 특이사항은 없었으며, 이학적 소견상 압통 및 경부 림프절 비대는 관찰되지 않았다. 초음파 검사상 엽상의 경계가 뚜렷한 양성 종양으로 진단되었으며, 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI) 촬영에서 이하선을 싸고 있는 근막 아래에 잘 구분되고 매끄러

Correspondence: So-Min Hwang
Aesthetic, Plastic and Reconstructive Surgery Center, Good Moonhwa Hospital,
119 Beomil-ro, Dong-gu, Busan 601-803, Korea
Tel: +82-51-630-0199 / Fax: +82-51-630-0145 / E-mail: blueorange1009@hanmail.net
Received August 31, 2013 / Revised September 19, 2013 / Accepted October 7, 2013

운(smooth) 경계를 가진 등근(round), 낭성 소결절(nodule) 형태의 종양이 관찰되어 낭성 신경초종, 낭성 신경섬유종 등의 양성 종양을 의심하였다(Fig. 1).

수술은 전신마취 하에 진행되었으며 좌측 협부의 피부 절개 후 종양에 접근하여 절제술을 시행하였다(Fig. 2). 종양은 근막 아래에 이하선의 표층에서 잘 구분되어 있었으며 주위 조직으로의 침범, 유착 및 림프절 비대 등의 악성을 의심할만한 소견은 관찰되지 않았다. 수술 시 이하선 및 이하선관(parotid duct), 교근(masseter muscle) 등의 주변 구조물 손상은 없었다. 절제된 종양은 2.7×1.5×1.4cm의 크기로, 낭

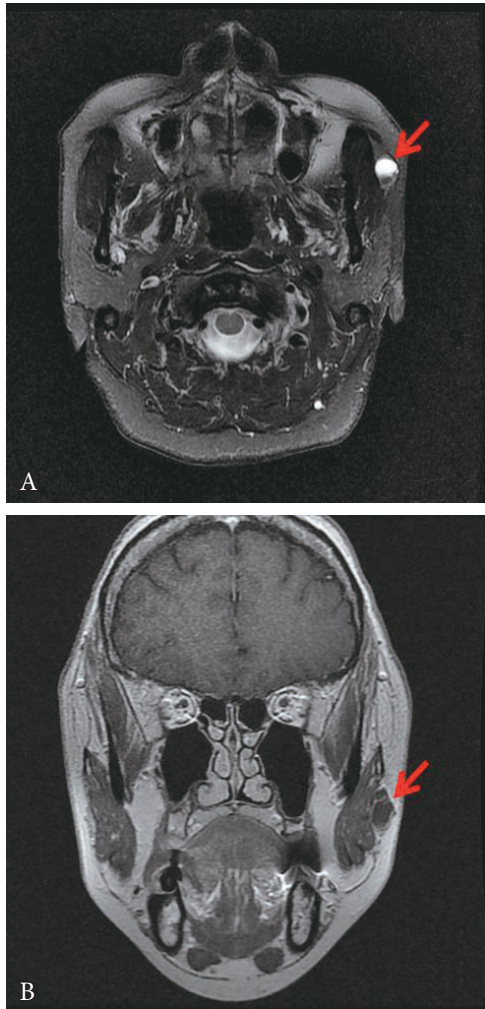


Fig. 1. Preoperative magnetic resonance imaging findings. Tumor (red arrow) was surrounded by deep facial fascia and masseter muscle, multi-cystic structure was observed. Tumor was discriminated well from the surrounding tissues. (A) High signal intensity on T2 weighted axial image. (B) Low signal intensity on enhanced T1 weighted coronal image.

종성이며 적갈색의 점액질로 가득 차 있었다(Fig. 3).

조직병리 소견상 종양 안은 낭성관강(cystic lumen)으로 이루어진 다낭성(multi-cystic) 구조였으며, 강내 유두상 구조가 관찰되었다. 선방 세포(acinic cell) 및 표피양 세포(epidermoid cell) 등 다른 낭성 타액선 종양의 특징적인 세포들은 관찰되지 않았다. 혈관이나 신경으로의 침범은 관찰되지 않았다(Fig. 4). 추가적으로 면역조직화학 검사를 시행하였고, Peiodic acid-Schiff (PAS) 염색 및 Alcian blue 염색상 강내 (intraluminal) 점액소(mucin)를 보여 타액선 종양의 특징을 보였고, Ki-67 염색에서 세포핵의 유사 분열 빈도가 낮아 저등급 악성 종양의 특징을 나타내었다(Fig. 5). 이상의 검사결과를 바탕으로 배제적 진단을 통해 낭선암종을 진단하였다.

수술 후 방사선 종양학과와 협진 하에 시행한 양전자 방출단층촬영술(positron emission tomography-computed to-



Fig. 2. Intraoperative finding. Cystic mass on the left cheek was excised.



Fig. 3. Gross finding of cystic mass. The size was 2.7×1.5×1.4 cm.

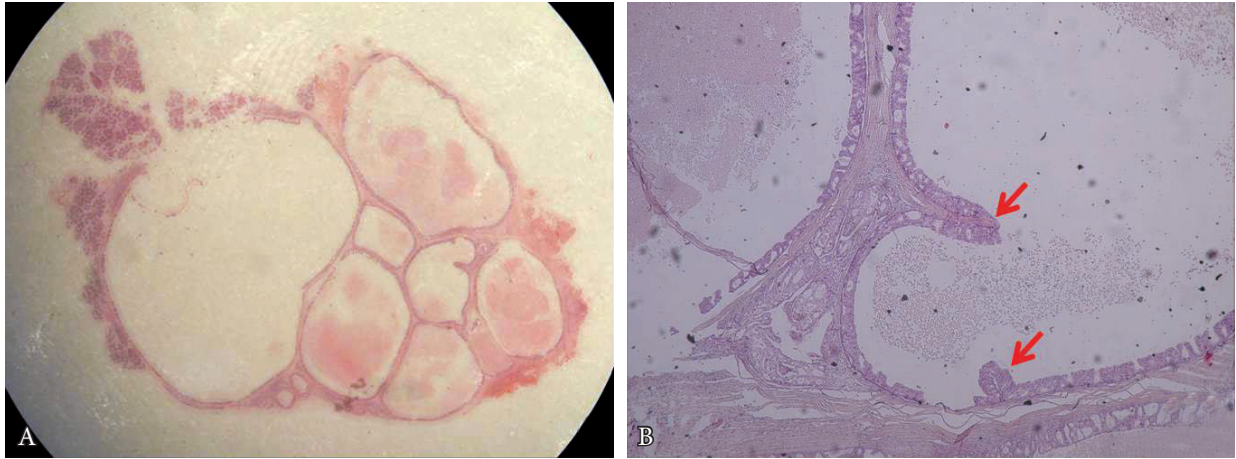


Fig. 4. Histologic findings. (A) Well-circumscribed tumor was characterized with multilocular and numerous haphazardly arranged cystic mass (H&E, $\times 10$). (B) Intraluminal papillary growth was seen in cyst (red arrows), cyst consisted of columnar and small cuboidal cells (H&E, $\times 40$).

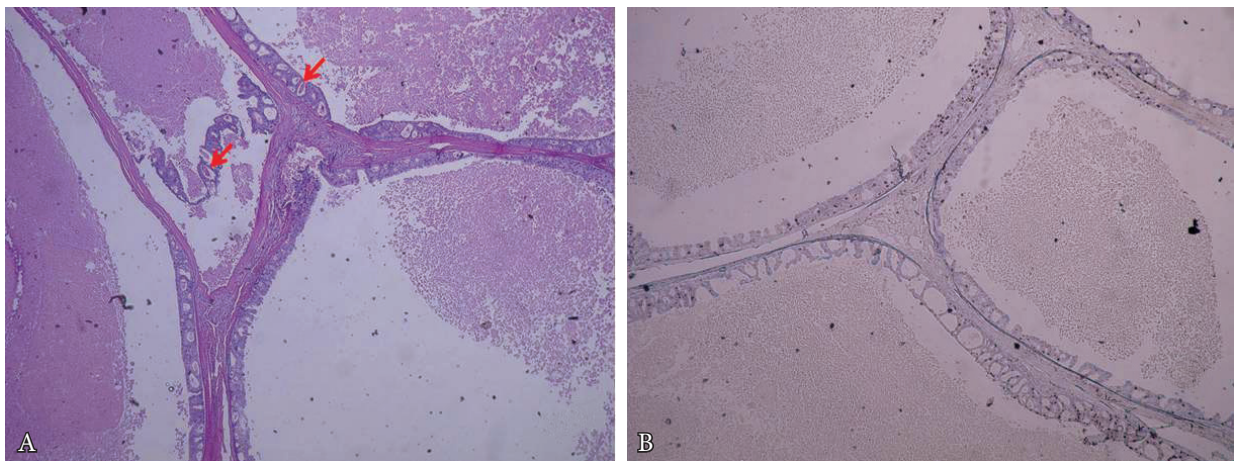


Fig. 5. Immunohistochemical study. (A) Cyst was filled with mucin (red arrows) (Peidoric acid-Schiff, $\times 40$). (B) Rare mitosis was observed. Low Ki-67 proliferation index (Ki-67, $\times 40$).

mography, PET-CT)상 전이나 재발 등의 소견은 관찰되지 않아 항암 화학 요법이나 방사선 치료 등을 시행하지 않았다. 수술 후 안면마비나 타액선종, 감염 등의 합병증은 발생하지 않았고, 10개월간 경과 관찰 중 재발이나 전이 등의 소견은 관찰되지 않았다.

고 찰

낭선암종은 1991년 WHO분류법에 의해 유두상 낭선암종으로 처음 분류된 후, 2005년에 낭선암종으로 재분류 되었으며 드문 질환으로 임상적으로 많은 연구가 되어있지 않

다[2].

Foss 등[7]의 연구에 의하면, 낭선암종은 남녀 발생 비율이 1:1로 비슷하며 평균 발생 나이는 58.8세로 알려져 있다. 65% 가량이 주타액선에서 발생하였으며 이하선에서 가장 발생 빈도가 높았다. 환자들은 이환 부위의 종물감을 주소로 내원하는 경우가 많으며 대개 통증, 압통, 감각이상, 궤양 등의 증상은 동반되지 않았다.

현저한 낭성 조직이 특징적이며 낭성 조직을 나타내는 다른 타액선 종양의 특이한 소견이 없을 때 배제적 진단으로 최종 진단을 할 수 있다. 특징적인 강내 유두상 구조는 종양의 75%에서 관찰되었으며 유두의 형태는 다양한 양상을 나

타냈다. 종양의 평균 크기는 주타액선에서는 2.4 cm, 소 타액선에서는 2.2 cm로 큰 차이가 없었다. 주위 조직과 경계가 잘 구분되며, 낭성 또는 다낭성으로 투명하거나 갈색의 액체가 차 있는 양상이다[7].

낭선암종의 낭성 조직은 소입방형, 대입방형, 원주형, 혼합형으로 구조로 이루어져 있었으며, 7.5%의 환자에서 재발하였는데 재발과 조직학적 소견과의 상관관계는 없었다[2,7]. 낭선암종은 서서히 자라는 저등급의 악성 종양으로 세포 분열, 괴사 등 고등급 악성 종양의 세포학적 특성은 드물다고 되어있으나 보고된 바는 있다[6,8].

수술 전 세침 흡인(fine needle aspiration) 세포 검사를 시행할 경우 진단 가능성을 높여 치료에 도움을 줄 수 있다. 하지만 주위 조직 침범여부를 평가할 수 없어, 비 Warthin성 낭선종과 같은 양성 종양과도 구별하기 쉽지 않고[9], Warthin 종양으로 오진되기도 한다[10]. 저등급의 악성 종양일 경우, 수술 전 CT나 MRI 검사에서도 주위 조직으로의 침윤과 같은 전형적인 소견을 보이지 않아 악성 여부를 파악하기 어렵다. 감별 진단을 위해 세침 흡인 세포 검사를 함께 시행하기도 하나, 종양의 아형(subtype)을 진단하기는 힘들다. 그러므로 수술 전 영상에서 타액선 주위 및 상부 경부의 낭성 종양이 진단되면 꼭 낭선암종을 감별진단에 포함시켜야 한다[11].

낭선암종은 현저한 낭성 성장이 특징적이거나, 낭성 성장을 하는 다른 타액선 종양들의 특징을 배제해야 최종적으로 진단을 할 수 있다. 낭선암종과 주의 깊게 감별해야 할 종양으로는 저등급 점막표피양 암종, 선방 세포 암종 등이 있다[2,7]. 점막표피양 암종은 낭선암종과 다르게 종양의 상피부에서 편평 분화(squamous differentiation)를 나타내며, 점막 세포와 표피양 세포 등 다양한 세포를 포함한다. 선방 세포 암종은 선방 세포가 관찰되며 상피 증식의 정도가 낭선암종에 비해 높다[2,7,12]. 또한, 양성 종양인 낭선종과의 감별은 타액선 실질이나 주위 조직으로의 침윤성 성장 여부를 확인하여 구분할 수 있다[2].

치료방법으로는 이하선의 종양일 경우 이하선 천엽 또는 전엽 절제술을, 악하선이나 설하선인 경우 타액선 절제술을 시행하며 소타액선에 발생한 경우 광역 절제술(wide excision)을 시행한다고 알려져 있다[2,7,13]. 수술 후, 주위 조직으로의 전이나 재발 여부를 경과 관찰한다. 골 침범 시 골절제를 시행하며, 주위 조직 침범이나 림프절 전이가 관찰될

경우 림프절 절제술이나 방사선 치료를 병행하여 치료한다[2,14].

낭선암종은 수술 전 검사에서 양성으로 오인되기 쉬우므로, 타액선 및 구강 점막에 낭성 종양이 발생하였을 때 감별 진단해야 하며, 저등급 악성 종양의 특성상 재발 및 전이가 드물지만 주의 깊은 경과 관찰이 필요하다.

Conflict of Interest

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

References

- Holsinger FC, El-nagger AK, Torres L, Rosenthal DI, Weber RS. Malignant neoplasms of the salivary glands. In: Witt R. editor. Salivary gland diseases: surgical and medical management. New York: Thieme; 2005. p.141-63.
- Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D. World Health Organization classification of tumours: pathology and genetics of head and neck tumours [Internet]. Lyon: IARC press; 2005 [cited 2013 Oct 7]. Available from: <http://screening.iarc.fr/doc/BB9.pdf>.
- Oh SJ, Lee JH, Kim YH, Kim YA. Papillary cystadenocarcinoma arising from minor salivary glands in the retromolar trigone. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2004;47:696-9.
- Kim SG, Park SK, Kim MG, Lee KD. A case of papillary cystadenocarcinoma arising from submandibular gland. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2006;49:942-5.
- Choi JW. MRI findings of a huge cystadenocarcinoma of the palate. Korean J Oral Maxillofac Radiol 2010;40:191-6.
- Kim D. Papillary cystadenocarcinoma in the retromolar area: a brief case report. Korean J Pathol 2005;39:433-6.
- Foss RD, Ellis GL, Auclair PL. Salivary gland cystadenocarcinomas: a clinicopathologic study of 57 cases. Am J Surg Pathol 1996;20:1440-7.
- Pollett A, Perez-Ordóñez B, Jordan RC, Davidson MJ. High-grade papillary cystadenocarcinoma of the tongue. Histopathology 1997;31: 185-8.
- Aloudah NM, Raddaoui E, Aldhahri S, Al-Abbadi MA. Low-grade papillary cystadenocarcinoma of the parotid gland: presentation of a case with cytological, histopathological, and immunohistochemical features and pertinent literature review. Diagn Cytopathol 2009;37: 128-31.
- Gallego L, Junquera L, Fresno ME, de Vicente JC. Papillary cystadenoma and cystadenocarcinoma of salivary glands: two unusual entities. Med Oral Patol Oral Cir Bucal 2008;13:E460-3.
- Enomoto K, Yamashita H, Harada H, Shibuya H, Noguchi H, Yoshida M, Uchino S, Noguchi S. A case of cystadenocarcinoma of the ectopic salivary gland: comparison of pre-operative ultrasound, CT and MR

- images with the pathological specimen. *Dentomaxillofac Radiol* 2012;41:349-54.
12. Aydin E, Turkoglu S, Ozen O, Akkuzu B. Mucinous cystadenocarcinoma of a minor salivary gland in the upper lip: case report. *Auris Nasus Larynx* 2005;32:301-4.
 13. Shteyer A, Fundoianu-Dayan D. Papillary cystic adenocarcinoma of minor salivary glands. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1986;15:361-4.
 14. Chou C, Zhu G, Luo M, Xue G. Carcinoma of the minor salivary glands: results of surgery and combined therapy. *J Oral Maxillofac Surg* 1996;54:448-53.