

下顎骨에 發生한 Adenoid cystic carcinoma의 症例報告*

서울대학교 齒科大學 口腔病理學敎室

(指導敎授 趙 漢 國)

申茂樹 · 金顯豐 · 金智壽

呂寅行 · 張亨祿 · 鄭基根

ADENOID CYSTIC CARCINOMA OF THE MANDIBLE

Mu Soo Shin, D.D.S., Hyun Pung Kim, D.D.S.

Zi Soo Kim, D.D.S., In Haeng Yuh, D.D.S.

Hyong Rhok Chang, D.D.S. · Ki Kun Chung, D.D.S.

Department of Oral Pathology, College of Dentistry, Seoul National University

(Directed by Assit. Prof. Han Kuk Cho, D.D.S., M.S.D., Ph. D.)

Abstract

The authors have observed a case of adenoid cystic carcinoma occurred in molar portion of the left mandible in 59-year old woman.

The results are as follows:

1. Roentgenographic findings revealed pathological fracture of the left mandibular body.
2. The patient complained of burning sensation of tongue and facial dull pain.
3. Microscopically, in the portion of glandular arrangement of tumor cells, the mucinous materials were contained, and the mitotic figures of tumor cells did not appear in this case, and the stromal connective tissue revealed hyaline degeneration and myxomatous degeneration.
4. The tumor cells were infiltrated not only perineural lymphatics, but also perineurium and intraneural tissue.

—目 次—

第一章 緒 論
第二章 症 例

第三章 總括 및 考按

第四章 結 論

參考文獻

寫眞附圖 및 說明

*本 論文은 1969年度 大韓口腔病理學會에서 發表한 것을 補充한 것임.

第一章 緒 論

Adenoid cystic carcinoma는 주로唾液腺에서發生되는腺癌의一種으로서¹²⁾¹⁴⁾, 1752年 Kaltshmiel⁵⁾가 처음으로記述한 바 있으며, 1859年 Billroth¹²⁾¹⁴⁾가 “Cylindroma”로命名한 이래 여러學者들의研究報告¹⁾⁵⁾⁸⁾⁹⁾¹²⁾¹⁷⁾¹⁸⁾²⁰⁾가提示되어 왔다.

이癌腫의病因論에關해서는論說이區區하여唾液腺混合腫의一種¹¹⁾으로看做된 때도 있었으나最近에 이르러서는明確히腺癌의一種¹¹⁾¹³⁾으로分類되고 있다.

또한發生起源에關해서도 아직定說이 없으나, Bruce et al. (1967)⁶⁾의組織化學的 연구 및多數學者들¹¹⁾¹³⁾의研究報告에依하면唾液腺의道管上皮細胞를 그由來로推定하고 있으며, Hoshino et al. (1970)¹²⁾은電子顯微鏡의研究結果 Intercalated duct의細胞가 그發生起源이 아닌가推定한 바 있다.

肉眼的所見은唾液腺混合腫과類似하며顯微鏡의으로도比較的良性을 보이나,豫後 및經過는惡性을 띄는特異한癌腫으로서, 특히神經組織을 통한腫瘍細胞의浸潤 및他臟器로의轉移를보여서顔面神經麻痺等の特異症狀을惹起하게 되며, Ballantyne et al. (1963)³⁾은腫瘍細胞의神經組織을 통한他部位로의轉移를研究報告한 바 있다.

著者等은 서울大學校 齒科大學 口腔病理學教室의生檢例中一例의 Adenoid cystic carcinoma를臨床 및病理組織學的으로觀察한 바 있어 이를報告하는 바이다.

第二章 症 例

患 者 : 金○杯 女子 59才

初診日 : 1969年 6月 25日

主 訴 : 甚한 顎關緊急 및 顔面 鈍痛

既往症 : 4年前 下顎 左側 偶角部の腫脹, 舌의疼痛 및 灼熱感을 느꼈으며, 3年前 某病院에서 約 2個月間 治療한 바 있고, 2年前 某 醫大 附屬病院에서 顎骨底部를 手術한 적이 있다.

現 症 : 左側의 甚한 顎關緊急과 顔面 鈍痛을 느끼며 咬筋은 甚히 硬結 腫脹되어 있다. 上顎은 無齒顎이며 下顎은 兩側 大白齒가 拔去 消失되고 殘存齒도 甚한 齶蝕症에罹患되어 있으나 口腔粘膜은 正常을 維持하고 있다.

X-線 所見 : 左側 下顎骨體의 骨破壞로 因하여 病的 骨切을 보이거나, 偶角部에는 오히려 若干의 骨增殖을 보인다.

臨床診斷 : Fibro-osseous lesion

顯微鏡的 所見 : 腫瘍細胞의 細胞質은 低고 比較的 큰 圓型의 細胞核은 Hematoxylin에 濃染되어 核小體는 볼 수 없으며 一見하여 上皮의 基底細胞와 類似하다. 腫瘍細胞는 그 排列像이 多樣하여 腺狀構造를 이룬 境遇 內腔은 Hematoxylin에 淡染되는 粘液樣物質을 含有하며, 또한 腫瘍細胞는 無構造한 細胞塊를 이루기도 하고, 間質에 分散되어 隣接 細胞質이 서로 吻合되어 나타나기도 하며 때로는 細胞塊의 中心性變性으로 因하여 마치 瑛瑯芽細胞腫을 보는 感을 느낀다. 또한 腫瘍細胞는 神經周圍 淋巴腺은 아니라 神經鞘 및 神經內部에 까지 顯著한 浸潤을 보인다. 그러나 腫瘍細胞의 分裂像은 볼 수 없다. 間質인 結締組織纖維는 大抵 Eosin에 濃染되는 硝子樣變性 乃至 Hematoxylin에 淡染되는 粘液腫樣變性을 보인다.

顯微鏡的 診斷 : Adenoid cystic carcinoma

第三章 總括 및 考按

Adenoid cystic carcinoma는 Billroth (1895)¹⁴⁾가 Cylindroma로命名한 이래 Basalioma²⁾, Basaloid mixed tumor¹⁴⁾, Adeno-like mixed tumor²³⁾, Adenocystic basal cell carcinoma¹⁹⁾, Adenomyoepithelioma¹¹⁾ Cylindromatous adenocarcinoma³⁾, Adenocystic carcinoma¹³⁾等 외에도 그名稱이 매우 多樣하나 現在 美國等地에서는 주로 Ewig (1940)¹¹⁾이命名한 Adenoid cystic carcinoma로 불리워 지고 있으며, 獨逸을 비롯한 西歐에서는 Cylindroma로繼續 불리워지고 있는 傾向을 보이기는 하나 Cylindroma란名稱은 이腫瘍의 顯微鏡的인 形態를 일컫는 말이지 病理學的인名稱은 아니라고 하겠다²²⁾.

또한 이腫瘍의病因論도區區하여 Krompecher (1908)¹³⁾는 基底細胞癌腫의一種으로看做한 바 있으며, 1940年代 初까지만 해도唾液腺混合腫의一種¹¹⁾²¹⁾으로看做되어 왔으나, Dockerty et al. (1943)¹³⁾의以後로 Foote et al. (1954)¹¹⁾, Smith (1969)²⁴⁾, Gorlin et al. (1970)¹³⁾等 大部分의 最近의 學者들은腺癌의一種으로斷定하고 있다.

Adenoid cystic carcinoma의發生起源에關해서는 아직도 定說이 없어서唾液腺의道管上皮와 腺上皮, 粘膜의 基底細胞, 分泌上皮, Intercalated duct의 平滑筋 上皮等을 들고 있는데⁶⁾, Bruce et al. (1969)⁶⁾은 Acid phosphatase, Succinic dehydrogenase, Lactic dehydrogenase, Cytochrome oxidase, DPNH diaphorase, TPNH diaphorase等이 Adenoid cystic carcinoma의腫瘍上皮細胞와 正常 副唾液腺의道管上皮細胞

가 흔히 양성 酵素反應을 보임을 들어, 唾液腺의 道管 上皮細胞가 그 由來가 아닌가 推定한 바 있으며, Hos-hino et al. (1970)¹³⁾은 電子顯微鏡의 研究結果 Intercalated duct의 平滑筋上皮에서 由來된 것이 아닌가 推定한 바 있는데, 現在 大部分의 學者들은 唾液腺의 邊緣 道管上皮에서 由來된다는 說을 支持하고 있다¹¹⁾.

Adenoid cystic carcinoma는 唾液腺 癌腫中 가장 頻發하는 癌腫으로서³⁾, 主唾液腺보다 오히려 副唾液腺에서의 發生率이 높아 Potdar et al. (1969)¹⁵⁾에 依하면 이 癌腫은 副唾液腺에서 發生되는 全 惡性腫瘍의 約 37.3%를 차지함을 報告한 바 있으며, 特히 硬口蓋에서의 發生率은 全 唾液腺에서의 發生率이 約 50%에 達한다고 하는데, 이는 硬口蓋에 가장 많은 量의 副唾液腺이 分布¹⁵⁾하고 있기 때문이 아닌가 思料된다. 이 외에도 三大 主唾液腺, 頰粘膜, 口脣, 舌, 鼻腔, 上顎洞, 咽頭, 氣管枝, 淚腺, 乳腺等에서도 發生²⁾⁴⁾¹¹⁾¹³⁾¹⁹⁾된다고 하며, 漿液腺에서 보다는 粘液腺에서의 發生率이 顯著히 높다¹³⁾고 한다.

好發年齡은 大概 40~60代³⁾⁴⁾¹³⁾¹⁴⁾¹⁹⁾이며, 性別의 差異는 없다²⁰⁾고 하나 Shafer et al. (1963)¹⁹⁾은 男:女가 6:5程度라고 하나, 顎下腺에서는 오히려 女性에서 더 頻發된다는 報告¹³⁾도 있다.

本 症例에서는 59才 女子로서 上記 臨床所見과 一致된다고 보겠으나, 腫瘍의 原發部位는 腫瘍組織의 廣範圍한 增殖으로 因하여 推定할 수 없었다.

이 癌腫은 臨床의으로는 唾液腺 混合腫과 類似하여¹¹⁾²⁰⁾ 增殖도 느린 편이나 神經周圍 淋巴腺이나 神經鞘 또는 神經內部를 通하여¹⁾¹¹⁾¹²⁾¹⁴⁾¹⁵⁾²⁰⁾, 肺, 骨組織, 腦等으로 轉移¹³⁾¹⁹⁾되는 例가 許多하여 Lucas (1964)²⁾와 Shafer et al. (1963)¹⁹⁾은 이 癌腫의 約 30%가 隣接 淋巴腺으로 浸潤됨을 報告한 바 있고, Forman(1970)¹²⁾은 舌下部에 原發된 것이 肺로 轉移된 例를 報告한 바 있다.

또한 耳下腺에서의 發生例中 約 $\frac{1}{3}$ ¹³⁾에서는 第七 腦神經을 侵犯하여 顔面神經痙攣을 招來하게 되며²⁾¹¹⁾¹²⁾¹⁴⁾¹⁹⁾²⁹⁾, 早期疼痛도 特徵의이어서¹²⁾¹⁹⁾ Gorlin et al. (1970)¹³⁾은 顎下腺의 發生例의 約 $\frac{2}{3}$ 에서 發生 初期에 疼痛이 나타남을 報告하였다. 特히 Smith (1960)²⁰⁾와 Bhaskar(1965)⁴⁾에 依하면 口蓋에 發生된 境遇에는 頭蓋를 侵犯하여 早期에 致命的인 結果를 招來한다고 報告한 바 있다.

本 症例에서도 發病 初期에 舌의 灼熱感 및 疼痛을 呼訴한 바 있고, 現在까지도 繼續 顔面 鈍痛이 持續되는 點으로 보아 腫瘍細胞에 依한 舌神經 및 顔面神經의

侵犯을 推測할 수 있다.

Adenoid cystic carcinoma는 비록 顯微鏡의으로는 比較的 良性을 보이나, 被膜形成은 없거나 不完全하며²⁾¹¹⁾¹³⁾¹⁴⁾ 再發, 轉移等 惡性을 보이는 特異한 癌腫으로서 Grolin et al. (1970)¹³⁾은 "Wolf in sheep's clothing"이라고 表現한 바 있다.

惡性腫瘍임에도 不拘하고 腫瘍細胞의 分裂像을 거의 볼 수 없는 것이 이 癌腫의 特徵이라고 하나, Adkins et al. (1970)¹⁾은 口蓋에서 發生된 一例 報告에서 多數의 細胞分裂像을 觀察하였음을 報告한 바 있고 Chaundhry (1961)⁷⁾와 Shafer et al. (1963)¹⁹⁾은 腫瘍細胞가 偽珐瑯芽細胞腫樣 構造(Pseudoameloblastomatous pattern)를 이룬 곳에서는 종종 細胞分裂像을 볼 수 있다고 報告한 바 있으나, 本 症例에서는 전혀 細胞分裂像을 觀察할 수 없었다.

Foote et al. (1954)¹¹⁾은 腫瘍細胞가 腺狀 構造를 이룬 곳에서는 內腔에 腫瘍細胞가 分泌한 것으로 推測되는 Mucicarmine染色에 陽性反應을 보이는 粘液樣物質이 含有됨을 報告하였는데, 本 症例에서도 Hematoxylin에 淡染되는 粘液樣物質을 觀察할 수 있었다.

間質인 結締織은 變性으로 因하여 Hyaline, Mucus, Mucohyaline等을 形成하게 되어 變性 間質과 實質 腫瘍細胞의 顯微鏡的 排列像이 마치 Swiss cheese를 보는 感이 있는데¹¹⁾¹³⁾¹⁴⁾¹⁹⁾, Foote et al. (1954)¹¹⁾은 間質의 變性物質은 初期에는 Mucicarmine染色에 陽性反應을 보이거나 漸次 모두 硝子樣變性을 惹起하여 反應이 弱히됨을 報告하였으며, Feyrter (1962)¹³⁾는 變性物質이 主로 무엇으로 構成되어 있느냐에 따라서 Hyaline Cyndroma와 Mucinous Cyndroma로 區別한 바 있는데, 本 症例에서는 間質의 一部는 Eosin에 濃染되는 硝子樣物質을 보이며, 一部에서는 Hematoxylin에 淡染되는 粘液樣物質을 含有한 粘液腫樣變性을 보여서 上記 두 種類의 混合型이라고 보겠다.

또한 Ballantyne et al. (1963)³⁾의 報告와 같이 本 症例에서도 神經周圍 淋巴管內部에서 腫瘍細胞塊를 보였으며, 神經鞘 및 神經內部에서도 腫瘍細胞의 浸潤을 볼 수 있었다.

Morrison(1966)¹²⁾과 Potdar (1969)⁷⁾에 依하면 이 癌腫은 比較的 放射線 照射에 銳敏하다고 하나, 外科의 手術이나 化學療法等 모두가 根本的인 治療方法은 되지 못한다고 하며, 豫後도 不良한 편이어서 5年生存率이 約 35%²⁾ 48.5%¹⁾ 75%¹³⁾等으로 報告되고 있다.

以上과 같이 Adenoid cystic carcinoma는 아직도 解決하지 못한 여러가지 興味로운 課題를 提示해 주고 있어서, 앞으로 繼續的인 研究가 있어야 될 것으로 생각 된다.

第四章 結 論

- 1) 本 症例은 59才 女子의 下顎 左側 臼齒部에 發生된 Adenoid cystic carcinoma이다.
- 2) 左側 下顎骨體에서는 病的骨切을 일으켰으며 發生初期부터 舌의 灼熱感을 느끼고 顔面 疼痛이 持續된 例이다.
- 3) 顯微鏡的으로 腫瘍細胞가 腺狀 構造를 이루고 內腔에 粘液樣物質을 보며 腫瘍細胞의 分裂像은 볼 수 없었고 間質은 硝子樣 乃至 粘液腫樣變性을 보였다.
- 4) 神經周圍 淋巴腺, 神經鞘 및 神經內部에서 腫瘍細胞의 浸潤을 보였다.

REFERENCES:

- 1) Adkins, K.F., and Campbell, A.F.G. : Adenocystic carcinoma of the palate. *Oral Surg., Oral Path.*, 30:734, 1970.
- 2) Anderson, W.A.D. : *Pathology*. 5th ed., The C.V. Mosby Co., Asian ed., 1966.
- 3) Ballantyne, A.J., McCarten, A.B., and Ibanez, H.L. : The extension of cancer of the heart and neck through peripheral nerves. *Amer. J. Surg.*, 106:651, 1963.
- 4) Bhaskar, S.N. : *Synopsis of Oral Pathology*. 3rd ed., The C.V. Mosby Co., St. Louis 1969.
- 5) Brown, C.B., and Harper, B. : Adenoid cystic carcinoma (Cylindroma) of the tongue. *Oral Surg., Oral Med. and Oral Path.*, 15:398, 1962.
- 6) Bruce, R.A., and Wertheimer, F.W. : Enzyme histochemistry of adenoid cystic carcinoma of minor salivary glands. *J. Oral.*, 25:30, 1967.
- 7) Chaundhry, A.P., Vickers, R.A., and Gorlin, R.J. : Intra oral minor salivary gland tumors. *Oral Surg., Oral Med. and Oral Path.*, 27:716, 1969.
- 8) Chung, D.H., Kinneman, J.E.G., Lee, B.C., and Lee, Y.T. : Tumors of the jaws in Korea. *Oral Surg., Oral Med. and Oral Path.*, 27:716, 1969.
- 9) Crocker, D.J., Cavalaris, C.J., and Finch, R. : Intraoral minor salivary gland tumors. *Oral Surg., Oral Path.*, 29:60, 1970.
- 10) Fleming, H.S. : Salivary gland tumors.

Oral Surg., Oral Med. and Oral Path., 7:683, 1954.

- 11) Foote, F.W., and Frazell, E.L. : Tumors of the major salivary glands (In atlas of tumor pathology) Sect. IV., Fasc. II., A.F.I.P., Washington, D.C., 1954.
- 12) Forman, G.H. : Adenoid cystic carcinoma of the floor of the mouth presenting by metastases. *Oral Surg., Oral Med. and Oral Path.*, 29:1, 1970.
- 13) Gorlin, R.J., and Goldman, H.M. : *Thoma's Oral Pathology*, 6th ed., The C.V. Mosby Co., St. Louis, 1970.
- 14) Nathan, A.S., and Traiger, J. : Cylindroma (Adenocystic carcinoma). *Oral Surg., Oral Med. and Oral Path.*, 16:1155, 1963.
- 15) Potdar, G.G., and Paymaster, J.C. : Tumors of minor salivary glands. *Oral Surg., Oral Med. and Oral Path.*, 28:310, 1969.
- 16) Robbins, S.L. : *Textbook of Pathology with clinical application*. 2nd ed., W. B. Saunders Co., Philadelphia & London, 1964.
- 17) Ruhlman, D.C., Neely, A.R., and Crittenden, R.C. : Adenocystic carcinoma of the maxilla, *Oral Surg., Oral Med. and Oral Path.*, 20:330, 1965.
- 18) Salem, L.E., Zaharia, M., and Travezer, R. : Carcinoma of the paranasal sinuses. *Amer. J. Surg.*, 106:826, 1963.
- 19) Shafer, W.G., Hine, M.K., and Levy, B.M. : *A Textbook of Oral Pathology*. 2nd ed., W. B. Saunders Co., Philadelphia & Londond, 1963.
- 20) Smith, J.F. : Recurrent adenoid cystic carcinoma of the submaxillary gland. *Oral Surg., Oral Med. and Oral Path.*, 13:1103, 1960.
- 21) Smith, J.F. : Tumors of the minor salivary glands. *Oral Surg., Oral Med. and Oral Path.*, 15:594, 1962.
- 22) Smith, J.F. : Salivary gland lesions—Variations and predictability. *Oral Surg., Oral Med. and Oral Path.*, 27:499, 1969.
- 23) Thoma, K.H., and Goldman, H.M. : *Oral Pathology*, 5th ed., The C.V. Mosby Co., St. Louis, 1960.
- 24) Tyler, J.E., Salem, Ore, Krants, S., and Waldron, C.A. : Tumors of the salivary gland. *Oral Surg., Oral Med. and Oral Path.* 16:626, 1963.

— EXPLANATION OF FIGURES —

- Fig. 1. and 2.** Glandular arrangement of tumor cells with little stromal connective tissue. Note the mucinous materials in the cystic cavity. (Hematoxylin and eosin stain. 10 X 10)
- Fig. 3.** Hyaline degeneration of stromal connective tissue, and amorphous cluster of tumor cells. (Hematoxylin and eosin stain. 10 X 10)
- Fig. 4.** Infiltration of tumor cells into the perineural lymphatics, perineurium and intraneural tissue. (Hematoxylin and eosin stain, 10 X 10)
- Fig. 5.** Higher magnification of Fig. 1. (Hematoxylin and eosin stain, 10 X 43)
- Fig. 6.** Higher magnification of Fig. 4. (Hematoxylin and eosin stain, 10 X 43)

寫真附圖

