

顎下線과 頰粘膜에 발생한 多形性 腺腫의 치험례

경희대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

이상철 · 김여갑 · 류동목 · 이백수 · 김병주*

PLEOMORPHIC ADENOMA WHICH OCCURED BUCCAL MUCOSA AND SUBMANDIBULAR GLAND ; TWO CASE REPORTS

Sang-Chull Lee, DDS, Yeo-Gab Kim, DDS, Dong-Mok Ryu, DDS,
Baek-Soo Lee, DDS, Byung-Ju Kim, DDS

Department of Oral & Maxillofacial Surgery, College of Dentistry, Kyung-Hee University

Pleomorphic adenoma is the most common of all salivary gland tumors, constituting over 50% of all cases of tumors of both major and minor salivary gland origin and approximately 90% of all benign salivary gland tumors.

Of the major salivary glands, the parotid gland is the most common site of the pleomorphic adenoma. It may occur, however, in any of the major gland or in the widely distributed intraoral accessory salivary glands. The palatal glands are frequently the site of origin of tumors, and other parts of origins are as follows ; upper and lower lip, buccal mucosa, tongue and occasionally other sites. The majority of the lesions are found in patients in the fourth to sixth decades, but they are also relatively common in young adults and have been known to occur in children. It is somewhat more frequent in women than men.

The term "mixed tumor" has masquaeraded under a great variety of names throughout the years(e.g., enclavoma, branchioma, endothelioma, enchondroma), but the term "pleomorphic adenoma" suggested by Willis characterizes closely the unusual histologic pattern of the lesion. The accepted treatment for this tumor is surgical excision. The intraoral lesions can be treated somewhat more conservatively by extracapsular excision. In general, Lesions of the hard palate should be excised with the overlying mucosa, while those in lining mucosa, such as the lips, soft palate and buccal mucosa often can be treated successfully by enucleation or extracapsular excision. In our hospital, we experienced two patients who were identified pleomorphic adenoma which occurred at buccal mucosa, submandibular gland. The lesions were successfully treated by surgical excision.

I. 서론

多形性 腺腫(pleomorphic adenoma)은 大唾液腺에서 가장 흔히 생기는 질환이며 전체 唾液腺 양성

종양의 약 70%를 차지한다^{2,11)}. 호발 부위는 耳下腺 淺葉이며 大唾液腺에서 92.5%, 小唾液腺에서 6.5% 정도 발생된다고 보고되고 있다^{1,14)}.

大唾液腺 중에서는 耳下腺에서 가장 호발하며 小

唾液腺에서는 硬口蓋와 軟口蓋, 上脗과 下脗, 頰粘膜, 혀 등에서 발생한다. 호발 연령은 30~50대이며 여자에게서 좀 더 발생률이 높다. 그리고 질환의 발생 연령이 惡性化의 가능성 및 재발율과는 무관하다고 밝혀져 있다.

이 混合腫(mixed tumor)이라는 용어는 1866년 Broca에 의해 처음 사용되었는데 이는 이 종양의 기원이 上皮性和 結體職性 요소의 이중적 양상을 갖는다는 것을 강조하기 위함이었다. 그리고 이는 1874년 Missen에 의해 더 잘 알려지게 되었다^{12,13)}. 최근에는 多形性 腺腫(pleomorphic adenoma)이라는 어휘가 Willis에 의해 제안되었는데 이는 이러한 이중적 기원과 조직학적 다양성을 강조하기 위해서이다¹³⁾.

예후는 조직 소견보다는 치료법에 더 의존하며 학자에 따라 재발율을 5~50%로 보고하는데 이는 수술시 병소의 적출만하거나 술후 추적기간이 짧아서, 보고되는 재발율의 차이가 큰 것으로 생각되며 병소의 충분한 외과적 절제시에는 재발율이 1% 미만으로 보고되고 있다²⁷⁾.

病巢의 惡性 轉換度는 약3~15% 정도로 보고되고 있다^{6,29)}.

본 과에서는 각각 비교적 발생이 드문 부위인 顎下腺과 頰粘膜에 발생한 多形性 腺腫을 치험하였는바, 우측 顎下腺에서 발생한 多形性 腺腫은 顎下腺 절제술을 시행하였으며, 頰粘膜에 발생한 종양은 광범위한 외과적 절제술과 함께 口蓋 粘膜 移植을 통해 재건해서 비교적 양호한 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고드리는 바이다.

II. 증례보고

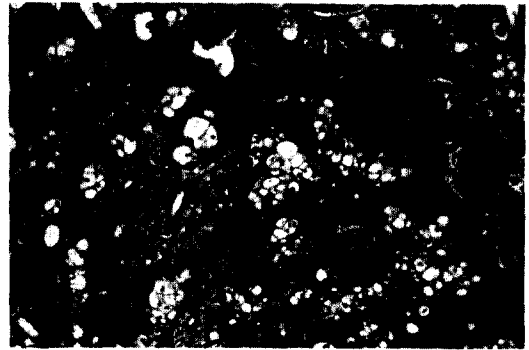
〈증례 1〉

35세 남자 환자가 우측 頰粘膜에 발생한 종물을 주소로 1991년 경희대학 구강악안면외과에 내원하였다. 환자가 처음 인지한 것은 초진 2년전 부터였으나, 별다른 치료없이 지내다가 종물이 점점 커지는 양상을 보여 내원 5~6개월 前부터 구강내 연고를 발랐으나 병소가 더 커져서 내원하였다.

現症으로는 우측 頰粘膜 부위에 불규칙한 표면을 가진 종물이 하부 조직에 단단히 부착되어 있었으며 그 크기는 2×2cm 정도되었다. 생검을 시행한 결과



불규칙한 표면을 가진 종물의 모습



근상피세포와 도관상피세포가 혼재해 있는 조직소견



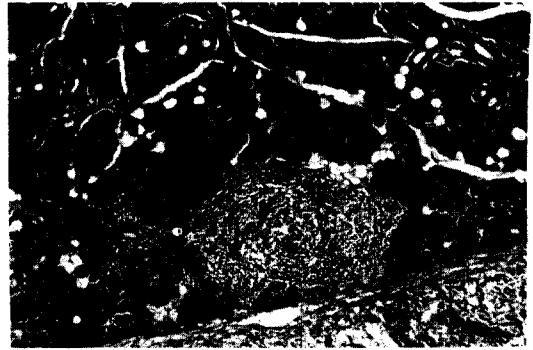
종물을 적출하고 구개점 막이식으로 피개한 모습

筋上皮細胞(myoepithelial cell)와 도관 상피(ductal epithelium)를 가진 多形性 腺腫으로 확진된 되었으며 술전 이학적검사에서 별다른 이상이 없었다. 이에 외과적 절제술을 시행하고 점막 손상 부위는 口蓋 粘膜移植(palatal mucosal graft)으로 피개시켜 주었다.

〈증례 2〉

25세 남자 환자 좌측 顎下腺부위에 종물을 주소로 1991년 경희대학 구강악안면외과에 내원하였다.

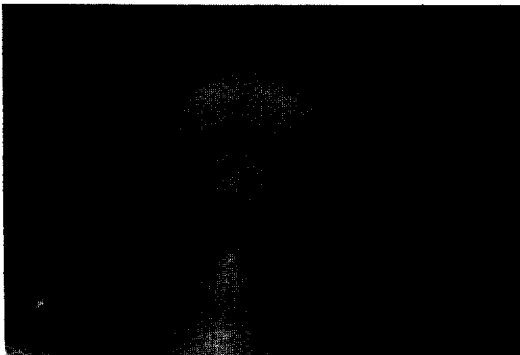
환자가 처음 종물을 인지한 것은 초진 3년전 부터였다. 그 이후 별문제 없이 지내다가 우측악하부 종창으로 본과에 내원하였다. 현증으로는 좌측 顎下部에 종창을 보였으며 종창 부위에는 촉진시 동통이 있었고 약간의 파동성도 있었다. 좌측 Wharton씨 도관(duct)의 타액분비 기능이 잘 되지 않았다. 초진 당시 唾液路 撮影(sialogram)을 시행하였으며, 컴퓨터 단층촬영 결과 양성 종물로 진단되어 외과적 顎下腺 적출술을 계획하였다. 술전 이학적 검사에서 다른 문제가 없었으며 통상적인 구강의 顎下腺 접근법으로 좌측 顎下腺을 적출하였다. 동결 생검(frozen biopsy)을 시행하여 종양 변연 부위에 종양 세포가 없는 것을 확인하고 봉합하였다. 술후 조직학적으로 종양 세포가 혼합성(mixed) 형태를 가지고 있는 多形性 腺腫으로 확진되었다.



상피성과 결체조직성 세포가 혼재된 모습



적출된 종물의 내면



우측 악하부 종창

III. 총괄 및 고찰

多形性 腺腫(pleomorphic adenoma)는 모든 연령층에서 발생하지만 특히 30, 40대에서 호발한다고 보고되어 있으며, Soskolne¹⁾ 등은 구강내 小唾液腺에 발생한 경우 여성에서는 나이가 증가함에 따라 일정하게 발병률이 증가하는 양상을 보이지만 남성에서는 30대와 70, 80대에 많이 발생되었다고 보고하였다. 그리고 또한 성비에 있어서는 여성에서 약 1.5 배 정도 호발한다고 보고되어 있다. 임상적 소견은 작고 단단한 무통성의 결절로 나타나며 耳下腺의 병소는 아주 클 수도 있으나 小唾液腺의 병소는 2cm 이상 되는 것이 거의 없다.

이러한 混合腫은 그 발생 기원이 명확하게 밝혀져 있지 않고, 또한 연골세포 또는 골세포와 유사한 세포들이 관찰되는 등, 다양한 조직학적 특성을 나

타낸다^{2,3,4)}. Ewing(1940)⁵⁾은 多形性 腺腫은 唾液腺 뿐만 아니라 미주성 胎生 원기 또는 새궁의 잔사로 부터도 발생한다고 보고하였으며, Shelolon(1943)⁶⁾은 54례의 多形性 腺腫에 관한 조직 연구에서 多形性 腺腫은 唾液腺에 정상적으로 존재하는 分泌上皮 및 농세포로부터 발생되며, 주로 分泌上皮로부터 발생되고, 농세포로부터 유래되는 多形性 腺腫은 그 수가 매우 적다고 보고하였으며, 多形性 腺腫과 유사한 양상을 띠는 종양이 피부, 누선 및 유방 등에서도 발견되었다고 보고하였다. Welsh등(1968)⁷⁾은 多形性 腺腫이 상피성과 간엽성의 종양성 요소로부터 유래한다는 것과 점액양 조직과 연골양 조직을 형성하는 종양성 上皮細胞로부터 유래한다는 것과 비종양성 간엽이 軟骨性 조직으로 화생되는 것을 자극하는 上皮細胞로부터 유래한다는 것 등으로 多形性 腺腫의 기원 및 다양한 조직학적 특성을 설명하였다.

Foote와 Frazell(1953)⁸⁾은 기질의 형태에 따라 점액양(36%)과 세포성(12%), 점액양 및 세포성이 동일한 양(30%), 그리고 세포성이 점액양에 비해 많이 존재하는 형(20%) 등으로 분류되어진다고 보고하였다. Batsakis(1974)⁹⁾는 내측은 上皮性 細胞, 외측은 筋上皮性 등의 다양한 형태로 관찰되며, 기질도 또한 다형성적이며 점액양, 점액종양, 연골성, 초자양 형태의 다양한 混合體로 구성되어 있다고 보고하였다.

多形性 腺腫의 발생 부위를 보면 耳下腺에서 약 84%, 顎下腺에서 8%, 舌下腺에서 0.5%, 小唾液腺에서 6.5% 정도 발생한다고 보고되고 있다. A. Soskolene¹⁾의 통계에 의하면 총 39예의 小唾液腺에서 발생한 多形性 腺腫(minor salivary gland pleomorphic adenoma)중 口蓋部에 27례, 頰部에 6례, 입술에 4례, 혀에 1례, 口腔低에 1례가 발생했다고 보고하였다. 그리고 Chaudhry는 총 773례중 口蓋부에 476례, 上脗에 105례, 下脗에 13례, 頰部에 38례, 혀에 18례, 후구치부에 40례, 타부위에 28례가 발생했다고 보고하였다¹⁴⁾. 이는 小唾液腺에서 발생한 종양중 55.7%를 차지한다.

多形性 腺腫의 진단방법은 환자의 피거력조사, 신체검사, 타액로 촬영(sialography), 컴퓨터 단층촬영과 초음파 검사등을 시행한다¹¹⁾. 타액로 촬영은 종물의 크기와 위치, 기원(內因性인지 外因性인지),

그리고 唾液腺 손상 여부 등을 판단하는데 도움을 준다. 만약 종물이 唾液腺의 중심부에 위치하고 있으면 타액로 촬영시 "ball-in hand apperance"를 보인다. 초음파 촬영술은 唾液腺의 임상적인 검사를 위한 방법으로써 그 가치가 높으며, 낭종성 병소와 종양성 병소를 구분할 수 있다¹³⁾. 심부에 위치한 종양일 경우, 특히 타액선이 팽창된 경우에는 컴퓨터 단층촬영이 주된 검사법이며 이는 악성 종양의 진단을 위해서는 필수적인 것이다²⁶⁾.

이 종양은 주위 선조직으로부터 경계가 불명확하기 때문에 그리고 발병 원인이 다양(multicentric)하기 때문에 단순 적출만 했을 경우 매우 높은 재발율을 보인다²²⁻²⁵⁾. 이러한 이유로 多形性 腺腫의 치료는 광범위한 외과적 절제술을 시행하는 것을 원칙으로 한다^{12, 13, 26)}.

耳下腺에서 발생했을 경우 병소가 顏面神經에 대해 표층으로 위치하고 있을 때는 표층 이하선 적출술(superficial parotidectomy)을 시행하고, 병소가 唾液腺의 심부에 위치할 때는 顏面神經을 보존하면서 完全 耳下腺 摘出術(total parotidectomy)을 시행하며, 악성 병소일 때는 顏面神經을 희생시키고 廣範圍 耳下腺 摘出術(total radical parotidectomy)를 시행한다^{12, 13, 24)}. 顎下腺에서 발생했을 경우에는 唾液腺을 적출해야한다. 구강내 병소인 경우에는 좀더 보존적인 방법을 쓰는데 硬口蓋에서는 상부 점막을 절제하며 입술, 軟口蓋, 頰粘膜에 생긴 경우에 있어서는 적출술(enucleation)이나 피막외 절제술(extracapsular excision)로 성공적으로 치유될 수 있다.

多形性 腺腫의 예후는 그 조직학적인 형태 보다는 치료 방법 선택의 적합성과 시술의 완전성에 달려 있다²⁹⁾. 여러 선학들은 재발율을 5%에서 50% 정도라고 보고하고 있다. 이렇게 재발율의 범위가 넓은 것은 단순 적출술만 시행했을 경우에 나타나는 재발등을 통계적으로 처리할 만큼 긴 기간동안 추적이 불가능 했기 때문일 것이다. 적절한 외과적 술식을 가하면 재발율은 1% 미만인 것으로 보고되고 있다²⁷⁾.

병소의 악성 전환도는 약 3%에서 15% 정도로 알려지고 있다^{8, 29)}. 악성 전환의 징후는 성장률의 가속화, 촉진시 종물의 불규칙성, 괴사성 동통성 궤양 형성, 顏面 神經侵犯등이다. 저자등이 치험한 증례는 전체 발생 빈도중 약 8%를 차지하는 顎下腺에

발생한 混合腫과, 극히 발생이 드물다고 보고되고 있는 頰粘膜에서 발생한 混合腫이었다. 이중 顎下腺 병소는 顎下腺 摘出術로 성공적으로 치유되었으며, 頰粘膜 병소는 피막의 절개술을 시행하고 口蓋粘膜 移植을 시행하여 각각 술후 3년이 지난 현재 재발 소견은 보이지 않고 있다.

IV. 결론

본 교실에서는 비교적 발생이 드문 부위에서 발생한 多形性 腺腫을 경험하고 다소의 임상지견을 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고드리는 바이다.

첫번째 증례는 발생이 매우 드문 頰粘膜에서 발생한 경우로써 술전 생검을 통해 多形性 腺腫으로 진단하고 충분한 외과적 절제술을 시행한 다음 口蓋頰粘膜移植術을 시행하였다.

두번째 증례는 大唾液腺중 顎下腺에 발생한 경우로써 수술시 동결 생검을 통한 종양세포의 침범 여부를 확인해서 절제 범위를 결정, 시술한 증례이다.

V. 참고문헌

1. A. Soskolne, A. Ben-Amar : Minor salivary gland tumors : A survey of 64 case, J. Oral surgery, 1973.
2. Shafer, W. G., Hine, M. K., and Levy, B. M. : A Textbook of Oral Pathology. 4, ed. W. B. Saunders Co., 1983.
3. Rankow, R. M. and Polayes, I. M. : Diseases of the Salivary Glands. W. B. Saunders Co., 1976.
4. Robbins, S. L., Cotran, R. S., and Kumar, V. : Pathologic Basis of Disease, 3, ed. W. b. Saunders Co., 1984.
5. Ewing, J. : Neoplastic diseases. 4, ed. W. B. Saunders Co., 1940.
6. Sheldon, W. H. : So-called mixed tumors of the salivary glands, Arch Path 35 : 1, 1943.
7. Welsh, R. A. : Mixed tumors of huma salivary gland : Histoogenesis. Acta Path 85 : 433, 1963.
8. Foote, F. W. and Frazell, E. L. : Tumors of the major salivary glands. Cancer 6 : 1065, 1963.
9. Batsakis, J. G. : Tumors of the head and neck, Baltimore, The williams & Willkins Co., 1974.
10. Enerooth, C. M. : Salivary gland tumors in the parotid gland. submandibular gland, and the palate region. Cancer, 27 : 1415, 1971.
11. Thawley, S. E., and Panje, W. R. : Comprehensive managemin of head and neck tumor. Philadelphia, W. B. Saunders, 1987.
12. Behrs, O. H., Judd, E. S., and Wookington, G. F. : Use of nerve grafts for repair of defects in the facial nerve. Ann. Surg., 153 : 433, 1961.
13. Chang, E. Z., and Lee, W. C. : Surgical treatment of poeomorphic adenoma of the parotid gland : Report of 110 cases. J. Oral Maxillofac, Surg., 43 : 689, 1985.
14. Chaudhry, A. P., Vickers, R. A., and Gorlin, R. J. : Intraoral minor salivary gland tumors. Oral Surg. 14 : 1194, 1961.
15. Lucas, R. B. : Pathology of tumors of the oral tissues, 2, ed. Churchill Livingston, 1982.
16. Vellios, F., and Shafer, W. G. : Tumors of the intraoral accessory salivary glands. Surg Gynec. Obstet. 108 : 450, 1959.
17. Bhaskar, S. N., and Weinmann, J. P. : Tumors of minor salivary glands. Oral Surg. 8 : 1278, 1955.
18. Crocker, D. J., Cavalaris, C. J., and Finch, R. : Inteaoral minor salivary gland tumors. Oral Surg., 29 : 60, 1970.
19. Bardwill, J. M. : Report of one hundred tumors of the minor salivary glands. Am J Surg, 112 : 493, 1966.
20. Luna, M. A., Stimson, P. G., and Bardwil, J. M. : Minor salivary gland tumors of the oral cavity. Oral Surg, 25 : 71, 1968.
21. Brown, R. L., Bishop, E. L., and Girardeau, H. S. : Tumors of the minor salivary glands, Cancer 12 : 40, 1959.
22. Donovan, D. T. : Capsular significance in parotid tumor surgery : Reality and myths of lateral lobectomy. Laryngoscope, 94 : 324, 1984.

23. Hancock, N. D. : Pleomorphic adenomas of the parotid ; removal without rupture. *Ann. R. Coll. Surg. Engl.*, 69 : 293, 1987.
24. State, D. : Superficial lobectomy and total parotidectomy with preservation of the facial nerve in the treatment of parotid tumors. *Surg. Gynec. Obstet.*, 89 : 237, 1949.
25. Toraya, A. A, Berens, O., Hale, H. W., and Wagener, J. : Parotid gland tumors, *Am. J. Surg.*, 120 : 629, 1970.
26. Maynard, J. D. : Management of pleomorphic adenoma of the parotid. *Br. J. Surg.*, 75 : 305, 1988.
27. Rauch, S., Seifert, G., and Gorlin, F. J. : Diseases of salivary glands : Tumors. In Gorlin, R. J., and Goldman, G. M.(eds.) : *Thoma's Oral Pathology*. St. Louis, C. V. Mosby Co., 1970.
28. Eneroth, C. M. : Classification of parotid tumors. *Proc. R. Soc. Med.*, 59 : 429—435, 1966.