

좌측 하악 후삼각부에 발생한 선양 낭종암의 치험례

인제대학교 부속 부산 백병원 구강·악안면외과학교실
오상화* · 김우형 · 손용준 · 고영규 · 이희철

A CASE REPORT OF ADENOID CYSTIC CARCINOMA OF THE MINOR SALIVARY GLAND IN RETROMOLAR PAD

Sang-hwa Oh, Woo-hyung Kim, Yong-Jun Son,
Young-Gui Kho, Hee-Chul Lee

Dept. of Oral and Maxillofacial Surgery, Pusan Paik Hospital, College of Medicine Inje University.

Adenoid cystic carcinoma is a malignant neoplasm belonging to a group of tumors of salivary gland origin.

It is an aggressive tumor characterized by slow growth and insidious destruction of surrounding tissues. Perineural invasion is a prominent feature.

Spread to regional lymph node is rare, other than by direct extension.

Distant metastasis are more common. We experienced a 65-year old female with adenoid cystic carcinoma of minor salivary gland in retromolar pad.

Key word : adenoid cystic carcinoma, retromolar pad.

I. 서 론

타액선 종양은 크게 이하선, 악하선, 설하선 등에서 발생하는 대타액선 종양과 구개, 구순, 설, 치은, 협점막 등에서 발생하는 소타액선 종양으로 구분되어지며 두경부 종양중 약 3%의 발생빈도를 보인다¹⁾.

이중 선양 낭종암은 1856년 Brillroth가 부비동에서 발생한 종양을 cylindroma로 처음 기술한 이후 1945년 Baucer와 Fox가 myoepithelial cell이 많다고 하여 adenomyoepithelioma로 명명하였으며 Adenocarcinoma, cylin-

droma type 등으로 불리다가 1953년 Froote와 Frazel이 선양 낭종암으로 명명하였다^{2,3,4)}.

타액선 조직에서 발생하는 악성종양중의 하나인 선양 낭종암은 발생부위에 무관하게 전형적으로 성장속도가 매우 느리고, 국소 재발률이 높고, 인접조직으로 무차별하게 파급되며, 최종적으로 원격전이 되어 결국에는 치명적인 결과를 초래하는 흔치않은 질병이다^{6,9,10,11,12)}.

이에 저자 등은 부산 백병원 구강·악안면외과에 내원한 60대 한국인 여성의 좌측 하악 후삼각부에 발생한 선양 낭종암에 대한 치험례를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증 례

- 환자 : 전○○, 65세, 여
- 초진일 : 1994년 7월 7일
- 주소 : 좌측 하안면부의 이상감각과 불편감
- 과거병력 : 류마티스성 관절염
- 기왕력 : 환자는 1994년 6월경 좌측 하안

면부의 종창과 동통, 그리고 이상 감각으로 인하여 약국에서 약물을 복용한 후 종창은 감소하였으나 이상감각이 지속되어 개인치과의원에 내원한 후 본과로 의뢰되었다.

· 임상소견 : 구강외소견으로서 좌측 하안면부에 약간의 종창을 보였으나, 피부는 정상소견을 보였다. 안면 신경의 이상소견은 없었으나, 좌측 하순과 이부에 이상감각을 호소하는 삼차 신경중 하악 분지의 손상을 보였다.

구강내 소견으로 후삼각부에 1.8×1.5cm 정도의 비교적 단단한 종창을 보였으나 개구제한은 없었다(Fig. 1).

· 방사선 소견 : Mandible P-A와 panorama상에서 불확실한 경계선을 가진 크고, 불규칙한 방사선 투과성 병소가 좌측 하악각과 하악지부위에 나타났다(Fig. 2). Bone Scanning상에서 전이소견은 나타나지 않았으나 좌측 하악부위에 방사성 동위원소 활성도가 증가된 양상을 보였고, 양측 무릎에 퇴행성 관절염을 나타내었다(Fig. 3).

수술전 MRI상에서 좌측 하악우각부와 하악지의 부분적인 피질골의 파괴와 좌측 내익돌근의 원심측 변연이 부분적으로 소실되어 있다. 협근은 손상되지 않았고 구강내로의 침입양상은 없었다(Fig. 4).

· 이하학적 검사소견 : 특기할 만한 사항은 없었다.

· 치료계획 : 광범위한 외과적 절제술

· 치료 및 경과 : 1994년 8월 16일 본과에 입원하여, Robinul, midazolam, valentac 및 urantac으로 수술전투약을 하였고, 1994년 9월 2일 비강 삼관술 및 Enfurane을 이용하여 전신마취하에 통법에 의한 수술전준비를 시행한 후 경부 광척술은 시행하지 않고 병소로 의심되는 부분을 frozen biopsy 하면서 종양의 광

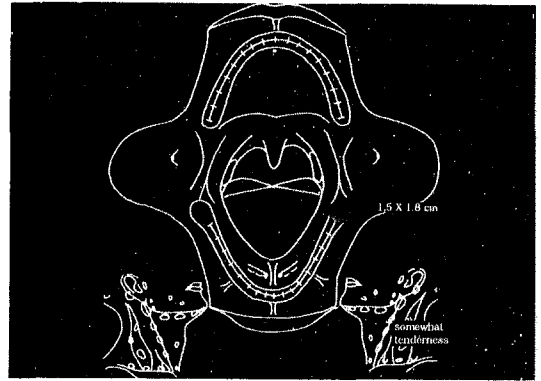


Fig. 1. Intraoral finding



Fig. 2. Mn P-A and Panorama

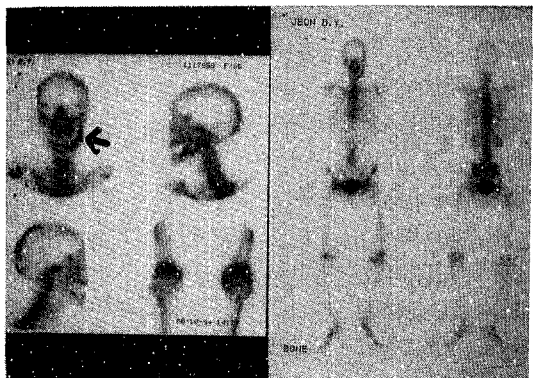


Fig. 3. Bone scan

범위한 절제술을 시행하였다. Submandibular approach를 연장하여 좌측 하악골의 편측 절

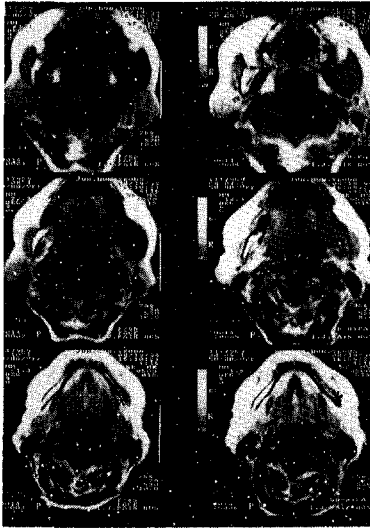


Fig. 4. Magnetic Resonance Imaging(pre-operative)



Fig. 6. Intraoral photography of the patient (post-operative)

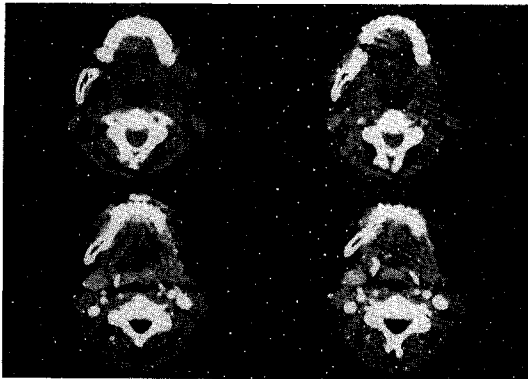


Fig. 5. Computed tomography (post-operative)



Fig. 7. Microscopic examination (H & E stain, $\times 40$)

제술과 악하선의 적출술을 포함한 광범위한 외과적 절제술을 시행하였다(Fig. 5).

생리 식염수로 수술부위를 세척한 후 구내 절개부위에 Hemo-vac을 삽입한 후 4-0 black silk로 구외에는 4-0 Dexon, 5-0 vicryl, 6-0 black silk를 사용하여 봉합하였다.

술후 처치로 부종과 종창을 방지하기 위하여 48시간 냉습포를 시행하였고, 감염예방을 목적으로 충분한 양의 세팔로 스포린계 항생제를 투여하였으며, 스테로이드와 진통-소염제를 처방하였다. Hemovac은 술후 2일째 제거하였

고, 수술후 10일에 걸쳐 완전발사하였다.

수술 후 환자는 개구시 약간의 변이와 좌측 혀 1/2의 마비는 있으나, 안면 신경의 손상은 없었고 수술후 1년 현재 안면 종창이나 재발 양상은 보이지 않고 있다(Fig. 6).

· 병리학적 소견 : H & E 염색한 조직 표본의 광학 현미경 소견에서 온전한 구강 점막 하방의 submu cosal layer에서 중앙세포를 볼 수 있는데, 다양한 크기의 사상형을 보여주고 있으며, (Fig. 7) 원주중성 조직이 골조직을 침범하여 사상형 양상을 보이고 있다(Fig. 8)

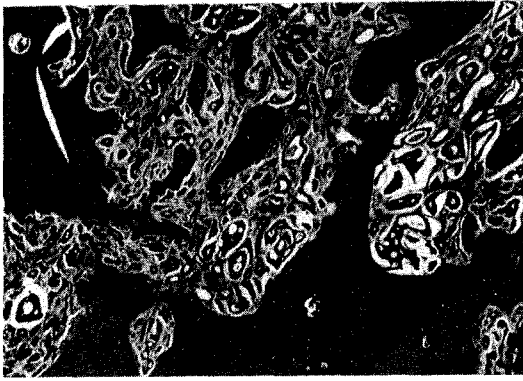


Fig. 8. Microscopic examination (H & E stain, ×100)

부분적으로 관상형 구조가 나타나고 있으며 특징적인 swiss-cheese 같은 양상을 보인다. 그러나, 신경주위로의 침윤을 볼 수 없었으며, 종양 세포들이 밀집되어 있는 고형성 증식이나 괴사소견도 관찰할 수 없었다.

이에 따라 선양 낭종암으로 진단하였다.

II. 총괄 및 고찰

선양 낭종암은 타액선조직에서 발생하는 악성 상피성종양으로 주로 이하선, 악하선, 구개나 혀의 소타액선 등에서 많이 발생하며 드물게는 후삼각 부위에서 발생하기도 한다¹³⁾.

Eby와 Baker에 의하면 악성 타액선종양은 두경부 종양의 3% 정도를 차지하고, 이종의 약 10%가 선양 낭종암으로 보고한 바 있으나, Lim 등에 의하면 한국인에서 발생한 악성 타액선종양 중 선양 낭종암은 약 16% 정도를 차지한다고 보고 한 바도 있다¹⁴⁾.

Bataskis에 의하면 선양 낭종암은 소타액선에서 발생하는 악성 종양의 35%를 차지한다고 하며 소타액선에서 발생하는 악성종양의 빈도는 주타액선보다 훨씬 높고, 예후도 극히 불량하다고 보고한 바 있다¹⁵⁾.

Armed Farcecl Institute of Pathology Series에 의하면 선양 낭종암은, 이하선(26.8%)>악하선(24.0%)>구개(20.5%)>혀(5.0%)>뺨(3.8%)>입술(3.7%)>구

강저(2.3%)>편도선(1.3%)>후삼각부(0.8%)의 빈도를 나타낸다는 보고가 있었다^{5,6,16)}.

드물기는 하나 상·하악골에 발생한 중심성 선양 낭종암은 10예 보고된 바 있고, 특히 Yosimura 등에 의하면 하악골의 경우 하치조 신경을 통해 반월 신경절까지 파급되기도 한다는 보고가 있다¹⁷⁾.

발생연령은 10대에서 80대에 이르기까지 다양하지만, 20세 미만에서는 드물고, 주로 40-50대에서 가장 호발한다. 한국인에서 선양 낭종암의 발생빈도에 대한 연구보고에 의하면, 평균연령은 49.4세이며 40대 발병률은 27% 정도이고 60대는 19% 정도이며 여자에서 거의 두배에 가까운 발병률을 보여주고 있다^{7,14,18,19)}.

이에 대해 Moertal, Elvebsck, Belson 등은 내분비 계통의 호르몬에 의해 여성에서 선양 낭종암이 호발하며, 또한 유방암과의 연관성 등을 주장한 바도 있다^{19,20)}.

본 증례의 경우는 65세로 호발연령에는 속하지 않았고, 발생빈도가 낮은편에 속하는 후삼각 부위의 소타액선에서 발생하였다.

A.C.C의 임상증상은 일반적으로 초기에는 무통의 종창과 고형성 종물을 환자가 느끼며, 크기가 상당히 진행되면 촉진시 동통을 호소하고, 불편감과 함께 지각이상을 호소한다^{6,9,21,22,23)}.

본 증례에서도 좌측 하안면부에 약간의 종창과 감각이상을 보였다. 이하선에서 발생하면, 1/3정도에서 안면 신경 마비를 보인다. 종양이 피부에 근접하면 발적, 모세 혈관 확장증 및 궤양을 나타낸다.

선양 낭종암은 점막으로 둘러싸여 있으나 불완전하며 신경조직을 포함하여 주위조직으로 침윤성 증식을 보이는 종양으로서 이러한 특징 때문에 침범된 신경이 분포하는 부위에 방사상의 통증과 지각이상 뿐만 아니라 40~50%의 높은 국소 재발률을 야기한다^{6,11,22)}.

Spiro(1974)는 7%의 재발률을 보고한 바 있으며, 또한 안면골 혹은 두개골에 직접 침윤할 수 있으며 골양의 기본양상을 파괴시키지 않기 때문에 방사선 사진에서 병소의 크기를 파악하는데 어려움이 많다. 많은 환자들은 원격전

이는 폐(40%), 골(20%), 기타 연조직(10%)의 순으로 많으며 경부 임파선 원격전이는 드물다고 보고하였다. 본 증례의 경우 폐, 경부 임파선 등의 원격전이는 없었으나 종물의 신경조직 침투로 인한 지각이상과 인접골의 파괴양상을 볼 수 있었다.

1984년 Szanto 등은 고형성 증식없이 관상 구조와 사상형으로 구성된 경우를 grade I, 사상형만으로 증식되어 있거나 고형성 증식이 30% 미만일 경우는 grade II, 주로 고형성인 경우는 grade III로 분류하면서 각각 15년 생존율이 39%, 26%, 5%라고 하였다. 조직학적 소견뿐만 아니라, 임상적인 종괴의 크기, 발생부위 및 치료방법, 환자의 발병시 나이, 수술 경계부위에 종양의 잔존유무, 진단시 국소적인 임파절의 전이 유무 등이 예후결정에 중요한 인자라고 하였다^{9,21)}.

본 증례에서는 고형성증식은 없었고, 다양한 크기의 사상형을 보이므로 well-differentiated Grade I에 속했다.

선양 낭종암과 감별진단해야 할 것으로는 종물이 고정되어 있지 않으면 양성 타액선 종양, 중배엽성 종양과 감별하고, 종물이 고정되어 있으면 mucoepidermoid carcinoma, acinic cell carcinoma, adenocarcinoma와 감별해야 된다.

만약 중심성 선양 낭종암이면 골수염, 치성 낭종, 법랑아세포종과 감별해야 한다. 본 증례의 경우 초진시 골수염으로 의심되어 약물요법을 시행하였으나 증상 호전되지 않았으며 확진시까지 시간이 걸렸다.

선양 낭종암의 끈질긴 임상적 성질로 인해 높은 국소적 재발률과 원격전이 및 사망에 이르게 하므로 광범위한 외과적 절제술을 시행한다.

1차 수술시 완전하게 종물을 절제하는 것이 환자의 장기간 생존과 치료에 중요한데, 원격전이가 경부 임파선 전이보다 더 흔하게 발생하기 때문에 경부 광철술은 경부 임파선 전이가 확인된 경우가 아니면 시행하지 않는다.

선양 낭종암은 방사선 치료에 감수성은 있으나 방사선 요법으로 치유되지 않는 종양인데, 수술후 방사선 치료는 국소적인 재발은 감소

시키나 생존기간을 증가시킬 수는 없다고 한다⁶⁾.

방사선 치료는 수술 경계부위에 종양세포가 있거나, 국소적으로 재발한 경우, 그리고 수술할 수 없는 경우의 치료에 도움이 된다^{21,39)}.

Rentscher와 Vermer에 의하면 선양포성 암종의 치료에 Adriamycin이 효과적이라고 보고한 바 있으나, 화학요법은 불충분한 치료방법으로 여겨지고 있다^{8,17,23)}.

본 증례의 경우 좌측 하악골의 편측 절제술을 포함한 광범위한 외과적 절제술을 시행하였으며, 수술후 1년 현재까지 재발없이 양호한 치료결과를 보이고 있다.

V. 결 론

저자 등은 부산 백병원 구강 악안면외과에 내원한 65세 여자환자의 좌측 후삼각부에 발생한 선양 낭종암에 대해 광범위한 외과적 절제술을 시행한 후 다음과 같은 결론을 얻었다.

1. A.C.C가 구강내 소타액선종 빈도가 낮은 좌측 후삼각부에서 발생하였다.
2. 종물의 신경조직 침투로 지각이상이 있었고, 인접골(하악골)의 파괴양상은 있었으나, 폐, 경부임파선 등의 원격전이는 없었다.
3. 술 후 개구시 약간의 변이와 혀의 좌측 1/2의 마비는 있으나 술후 1년까지 재발양상은 보이지 않았다.
4. 본 증례의 경우 광범위한 외과적 절제술을 시행하여 술후 1년 현재까지 만족할만한 결과를 보이고 있으며, 선양 낭종암은 방사선 요법으로 치유되지 않는 종양이고 화학요법은 불충분한 치료방법이라고 보고되고 있기 때문에 치료 방사선 요법이나 화학요법은 시행하지 않았다.
5. 선양 낭종암은 장기간에 걸쳐 국소적으로 재발하거나 원격전이 하는 임상적 성질 때문에 조기에 재발을 발견하기 위해 지속적인 추적조사를 요한다.

참고문헌

1. Leegnd T, Lindeman H. Salivary tumors clinical picture and treatment. *Acta Otolaryng* 1970. 263 : 155-159.
2. Billroth, T : Beobachtunguber geschwulsts der speicheldrusen *Arch path. Anat.* 17 : 357, 1959.
3. Bauer, WH, and Fox, R. A : Adenomyoepithelioma (Cylindroma) of palatal mucosa glands *Arch, path.* 39 : 96-102, 1945.
4. Foote FW, Frazell E. Tumors of the major salivary glands. *Cancer* 1953 6 : 1065-1133.
5. Leafsttdt, S.W, Gaesta, J.F., Marchetta, F.G., shedd, P.D. : A.C.C of major & minor salivary glands *Am. J. surg* 1972 : 756, 1972.
6. Matsuba. H.M, Thawhey, S.E, Simpson, J.R, Levine, L. A. and Mauney, M. : A.C.C of the major and minor salivary gland origin *Laryngo scope*, 94 : 1316-1318, 1984.
7. Conley. J. and Digman, D. I : A.C.C in the head & neck (cylindroma) *Arch. Otolaryngo.* 100 : 81-90, 1974.
8. Gates, G.A : Minor salivary gland tumors of the oral cavity. *otolaryngo. clin. North Am.* 5 : 28-39, 1972.
9. Miller, R.H., Calcatena, T.C. : Adenoid cystic carcinoma of the nose, paranasal sinus, and palate. *Arch Otolaryngol.* 106-424, 1980.
10. Pizer, M.E., and Dubos, D.D. : Adenoid cystic carcinoma of the upper lip, *Oral Med. Oral pathol.* 59 : 70-73, 1985.
11. Simpson, J.R., Thawley, S.E., and Matuuba, H.M. : Adenoid Cyustic Salivary Gland Carchnoma : treatment with irradiation and Surgery. *Radiology*, K151 : 509-512, 1984.
12. Szanto, P. a., Luna, M.A., Tortolede, E, and White, R.A., : Histologic grading of adenoid cystic carcinoma of the salvary glands. *Concer.* 54 : 1062-1069, 1984.
13. Eby, L.S., johnson, D.S., Baker, H.W. : Adenoid cystic carcinoma of the head and neck, *Cencer*, 29 : 1160, 1972.
14. 최남식, 임창윤, 홍삼표 : 구내 소타액선 종양의 발생빈도에 관한 연구 대한구강병리학회지 1988, 11 : 111-126.
15. Batsakis JG. Tumors of the head and neck : clinical and pathological considerations. 2nd edition 1979. The William and Wilkins Company, Baltimore.
16. Ellis, Auclair, Gnepp : Surgical pathology of the salivary glands, 1st ed. Philadelphia W. B. Sauders, 1991, p.401.
17. Yoshimura, Y., Hasegawa, K., Wada, T., Fujita, K., and Kanakatsu, M. ; Metastasis of adenoid cystic carcinoma of the mandible to the Gasserian Ganglion. *JADA*, 96 : 469-473, 1978.
18. Laskin, J.L., Hylton, R.P., Stern, M., nd Hornug, N. : Soft tissue lesion of the sublingual and submandibular region. *J. Oral Maxillofac. surg.*, 42 : 453-458, 1984.
19. Moertel, G.G., and Elveback, L.R. : The Association Between Salivary Gland Cancer and Breast Cancer. *JAMA*, 210 (2)L 306-308, 1969.
20. Belson, T.P., Toohill, R. L., Lehman, R.H., Chobanian, S.I., Grossman T.W., and Malin, T.C. : Adenoid Custic Carcinoma of the submaxillary gland. *Laryngoscope.* 92 : 497-501, 1982.
21. Moran, J.J., Becker, S.M., Brady, L.A., Rambo, V.B. : Adenoid cystic carcinoma, a clinicopathologic study. *Cancer* 14 : 1216, 1961.
22. Seaver, P.R., Kuehn P.G. : Adenoid cystic carcinoma of the salivary glands : a study of ninety three cases. *Am. J. Surg.* 137 : 449-455, 1979.
23. Smith, I.C., Lane, N., and Rankow, R.M.

- : Cylindroma (adenoid cystic carcinoma)
A report of fifty-eight cases. *Am. J. Surg.* 110-519-536, 1965.
24. Marsh, W.L., Allen : Adenoid cystic carcinoma. Biologic behavior in 38 patients. *Cancer* 43 : 1463-1473, 1979.
25. Fu, K., ET AL., : Carcinoma of the major and minor salivary glands. *Cancer*, 40 : 2882-2890, 1977.
26. Skibba, J.L. : Complete response of a metastatic adenoid cystic carcinoma of the parotid to chemotherapy. *Cancer* 47 : 2543-2548, 1981.
27. Spiro, R.G., Huvos, A.G., Strong, E.W., Adenoid cystic carcinoma of the salivary origin. *Am. J. Surg*, 1974 : 128 : 512-520.