

이하선의 Warthin씨 종양*

연세대학교 의과대학 외과학교실
이강영 · 정용윤 · 박정수

= Abstract =

Warthin's Tumor of the Parotid Gland

Kang Young Lee M.D., Woong Youn Chung M.D., Cheong Soo Park M.D.

Department of Surgery, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Warthin's tumor is a benign and slow growing tumor found exclusively in the parotid gland or the periparotid lymph nodes. It mostly affects males between the age of forty to seventy years and is closely related with smoking history.

Between January 1981 and June 1996, 42 patients underwent surgical excision of Warthin's tumor of the parotid gland ; which made up 10.6% of all parotid gland surgeries(398 cases) during the same period. Their ages ranged from 36 to 75 years with a mean age of 56 years. There were 33 male and 9 female patients with a 4.3 : 1 male to female ratio. The majority of the tumors were situated in the parotid tail whereas one was in the deep lobe. Bilateral simultaneous involvements of the parotid gland were found in 4 patients(9.5%) ; therefore total of 46 parotid glands were involved. Four(8.7%) of the 46 parotid glands had multifocal tumors ranging from two to three lumps. Tumor sizes varied from 1.5 to 6.0cm with mean diameter of 3.1cm. Of the 42 patients, 26(61.9%) were diagnosed preoperatively or peroperatively by means of CT scans, ultrasound, 99m-Tc. scan, fine needle aspiration cytology or intraoperative frozen section biopsy.

Of the 46 tumors, 30 underwent a superficial(n=29) or total(n=1) parotidectomy and for 16 cases with tumors suspected preoperatively or peroperatively of being single Warthin's tumor, only enucleation was performed. No cases of recurrence were identified during the follow up period regardless of type of operation performed, however the postoperative complication rate was much higher in the parotidectomy group(33.3%) than in the enucleation only group(12.5%).

We feel that an enucleation procedure may be appropriate for the patients with single Warthin's tumor.

KEY WORDS : Warthin's tumor · Parotidectomy · Enucleation.

*본 논문의 요지는 1996년 대한외과학회 춘계학술대회에서 구연 발표되었음.

Warthin씨 종양은 이하선에 발생하는 양성 종양 가운데 두번째로 많은 빈도를 차지하는 종양으로 이하선 종양 가운데 5~15% 를 차지하고 있다.

이 종양은 일반적으로 중년 이후의 남자에서 호발하며 이하선이나 그 주위에서 발생하고 주로 병변이 이하선의 표재엽 하부에 위치하며 특징적으로 다발성을 보인다. 1895년에 이 종양이 Hildebrand등¹⁾에 의하여 처음 보고된 이래로 이 질환의 발생 원인과 육안적, 조직학적인 특성 및 치료 방법에 대하여 많은 논란의 대상이 되고 있다.

특히, 수술방법 및 범위에 대하여 많은 논란이 되고 있다. 이에 저자들은 지난 15년간 Warthin씨 종양으로 수술받은 42예를 대상으로 이 종양의 임상적 특징, 치료 성적의 비교 및 문헌 고찰을 통하여 이 종양의 적절한 치료 방법에 대해 알아보하고자 한다.

대상 및 방법

1981년 1월부터 1996년 6월까지 연세대학교 의과대학 부속 신촌세브란스병원에서 이하선 종양으로 수술받은 398 환자 가운데 병리학적으로 Warthin씨 종양으로 진단받은 42예를 대상으로 이들의 병력 기록, 수술 기록, 병리 기록 및 외래 기록을 후향적으로 조사하여 이 종양의 성별 및 연령별 발생 빈도, 병소의 위치 및 크기, 양측성 및 다발성, 진단 시기, 수술 방법에 따른 재발이 없는 기간 및 합병증을 조사하였다.

재발이 없는 기간은 수술일로부터 조사의 시점까지로 하였고 재발의 유무는 문진, 이학적 검사 소견 및 영상 진단에 의하여 결정하였다.

종양이 발견된 46개의 이하선 중 29예(63.1%)에서는 표재엽절제술을 시행하였고, 수술전 혹은 수술중 Warthin씨 종양이라고 확인되고, 아울러 단일종양이라고 확신이 섰던 16예(34.8%)는 단순종양적출술을 시행하였으며, 심부엽에 발생한 1예는 이하선 전절제술을 시행하였다. 추적 관찰 기간은 2개월에서 190개월까지로 평균 67.5개월이었다.

42예의 Warthin씨 종양환자 중 34예는 남자, 8예는 여자로 남녀 성비는 4.3 : 1이었다. 평균 연령은 56세이었고 30대가 3예, 40대가 8예, 50대가 12예, 60대가 15예, 70대가 4예의 분포를 보였다.

전체 42예 중 38예는 내원 당시 한측의 이하선에만 종양이 발견되었고, 4예는 양측 이하선에서 동시에 종양이 발견되어 9.5%의 양측성을 보여 종양이 발견된 이하선의 총 수는 46개였다. 종양이 발견된 46개의 이하선 가운데 한개의 이하선에서 한개의 종양이 발견된 경우는 42예(91.3%), 한개의 이하선에서 두개의 종양이 발견된 경우는 3예(7.1%), 한개의 이하선에서 3개의 종양이 발견된 경우도 1예가 있었다. 이로써 42명의 환자에서 내원 당시에 진단된 종양의 전체 숫자는 51개였고 8.7%의 다발성을 보였다. 진단된 51개의 종양 가운데 50개는 표재엽에 위치하였고 1개가 심부엽에 위치하였으며, 표재엽에 위치한 종양가운데 43개가 표재엽의 하부, 4개가 중부, 3개가 표재엽의 상부에 위치하여 전체의 84.3%가 표재엽의 하부에 위치하였다.

종양의 크기는 1.5cm에서 6cm까지로 평균 3.1cm이었다.

수술전 진단 수기로는 컴퓨터 전산화 단층촬영, 초음파, ^{99m}Tc scan, 세침흡인술을 시행하였고, 수술 중에 동결절편 검사를 시행한 예가 17예 이었다. 이들 진단 수기를 이용하여 수술전, 혹은 수술중에 진단이 된 경우는 42명의 환자 가운데 26예로 진단율은 61.9%였다 (Table 1).

수술이 시행된 46개의 이하선에서 표재엽절제술 이상

Table 2. Methods of diagnosis(n=42)

	No. of cases	No. of Warthin's tumor suspected(%)
CT scan	19	12(63.2)
US	13	6(46.2)
FNAB	9	6(66.7)
^{99m} Tc scan	3	3(100.0)
Frozen section	17	17(100.0)

*CT scan=computerized tomographic scan ;

US=ultrasonography ;

FNAB : fine needle aspiration biopsy

의 수술이 시행된 30개의 이하선과 단순종양적출술이 시행된 16개의 이하선 모두에서 추적기간 중 재발된 예는 없었다. 그러나 수술 후 합병증은 표재엽절제술 이상의 수술을 시행받은 예에서 일시적인 안면신경 마비가 6예, Frey syndrome 3예, salivary fistula 1예로 33.3%의 합병증 발생율을 보였고, 단순종양적출술 중에서는 2예가 일시적인 안면신경 마비를 보여 12.5%의 합병증율을 나타내어 양 수술 방법간에 합병증 발생에는 차이를 보이는 경향이 있었다.

고 찰

Warthin씨 종양은 papillary cystadenoma lymphomatosum이라고도 알려져 있는데, 이 명명은 종양의 특징적인 조직학적인 모양에 근거를 둔 것으로 papillary cystadenoma는 종양이 낭성 구조를 이루며 두층의 상피가 낭종내로 유두상 돌기를 갖는다는 것에 대한 설명이고, lymphomatosum은 Warthin씨 종양에서 특징되어지는 종양을 지지하는 주변의 림프 조직에 대한 설명으로 종양의 명칭이 그 조직학적 특성을 잘 표현해 주고 있다¹⁻²⁾¹²⁾.

Warthin씨 종양은 이하선내에서 발생하는 양성 종양 중에서 양성 혼합종에 이어서 빈도상 두번째를 차지하고 있는 종양으로 빈도는 보고자에 따라 차이가 있으나 대개 4.7~14.4% 정도로 보고되고 있고³⁾ 많게는 30%까지 보고하는 이들도 있다⁹⁾. 이 종양은 특징적으로 남자에서 호발하여 5~7:1 정도로 남자에서 그 빈도가 높은 것으로 되어 있었으나⁶⁾, 최근의 외국 보고에서는 1~1.6:1로 여자에서의 빈도가 점차 증가하여 남녀 성비의 차이가 점차 없어져 가고 있다고 한다⁸⁻⁹⁾.

이러한 Warthin씨 종양이 여자에서 빈도가 증가하는 원인중 하나로 흡연을 들고 있는데, Warthin씨 종양 환자에서 남녀에 관계없이 90% 내외에서 흡연력이 있다는 것이 보고되고 있고⁸⁻⁹⁾¹⁴⁾, Kotwall⁷⁾은 흡연을 하는 군에서 Warthin씨 종양의 발병 위험성이 8배 정도 높다고 보고하기도 하였다. 또한 흡연과 관련된 질환의 증가 비율이 Warthin씨 종양의 증가 비율과 비슷한 점등을 들어 흡연과의 연관성이 강하게 제기되고 있다. 저자들의 연구에서 성비는 4.3:1로 남자에서 높은 빈도를 보였고 전체 이하선 종양에서 Warthin씨 종양의 빈도는 10.6%를 보여 우리나라의 경우 Warthin씨 종양은

중년의 남자에서 호발하는 질환임을 알 수 있었다. 저자들의 경우 후향적 연구인 관계로 대상 환자 모두에서 흡연력 등을 정확히 파악할 수가 없어 전체 환자에서 흡연인구의 비율을 결정할 수는 없었다.

Warthin씨 종양은 주로 이하선의 표재엽 미부에 발생하고⁸⁾ 8%정도에서는 이하선 외부에서 발생하며¹¹⁾ 드물게는 이하선 이외의 림프절에서 발견되기도 한다. 저자들의 경우에서도 51개의 종양 가운데 43개가(84.3%) 이하선의 미부에서 발견되었다.

이 종양의 육안적 소견은 잘 발달된 피막으로 둘러싸여 있는 회색-갈색의 종괴로 가끔은 엽상을 보이고 대개 낭성 구조물을 이루고 있으며 혼합종(pleomorphic adenoma)과는 달리 피막파열로 인한 pseudopod는 없다. 크기는 다양하게 관찰되나 평균 3~4cm 정도로 보고되어 있다¹⁸⁾. 저자들의 경우 평균 크기는 3.1cm였고 육안적으로 종양은 낭성 구조를 갖고 잘 발달된 피막에 의해 싸여 있음을 수술대에서 확인할 수 있었다.

이러한 모양을 갖는 Warthin씨 종양의 다른 특징은 다발성과 양측성에 있다. 외국의 여러 보고에 의하면 10%이상에서⁸⁾ 많게는 30%까지의 다발성과 5~9%의 양측성이 보고되고 있고⁵⁾ occult tumor도 6% 정도에서 발견된다고 한다. 또한 이 종양은 양성 종양으로 악성화의 가능성은 거의 없으나 1965년에 Warthin씨 종양에서의 편평 상피암이 보고된 이래로¹⁰⁾ 약 0.3% 빈도로 악성화를 보일 수 있는 것으로 되어 있다³⁾. 본 연구에서는 9.5%의 양측성과 8.7%의 다발성을 보였으나 모든 예에서 악성화가 있었던 경우는 없었다.

이 종양은 이하선 부위에서 서서히 성장하는 종괴외에 특징적인 임상증상은 없으며, 초음파 혹은 컴퓨터 단층촬영을 통하여 종양의 위치 및 크기 등을 알 수 있고, 환자의 70%정도는 99m-Tc. scan에서 hot uptake를 보이며 61~83%에서는 세침천자생검에 의하여 진단이 가능하다고 하였다⁵⁾. 본 연구의 대상 환자들도 주로 종괴가 촉진됨을 주소로 내원하였고 특별한 다른 증상은 없었다. 저자들은 수술전 전산화단층촬영, 초음파 또는 동위원소검사, 세침천자생검 등을 시행하였고, 수술시 의심이되는 경우 동결절편조직검사까지 시행하였는데 61.9%의 환자에서 종양적출전에 Warthin씨 종양이라고 진단할 수 있었다.

Warthin씨 종양의 치료는 수술적인 적출술이 되어야 함은 이견의 여지가 없으나 수술의 범위에 대하여 많은

논란이 있다. Zappia등¹⁵⁾은 이 종양이 악성화의 가능성은 거의 없으나 특정적으로 양측성과 다발성을 갖기 때문에 단순종양적출술로는 많은 재발의 여지가 있어 최소수술은 천엽절제술이 되어야 한다고 하였다.

그러나 Heller등⁶⁾은 천엽절제술 후의 재발율도 10% 이상 되어 단순종양적출술과 비교하여 재발율의 차이가 없다고 하였으며, 다른 문헌에서도 수술 방법에 따른 재발율의 차이는 없는 것으로 되어있다¹⁴⁾.

수술후 합병증은 단순종양적출술에 비하여 수술의 범위가 확대된 이하선절제술인 경우에 그 빈도가 높음이 보고되고 있는데, Woods등¹³⁾에 의하면 천엽절제술 이상의 범위를 수술하는 경우에 20%이상에서 Frey 증후군이 관찰된다고 하였으며, Ebbs와 Webb⁵⁾는 천엽절제술 이상의 수술을 하는 경우는 43%에서 안면신경진탕이 있었고 반면 단순종양절제술에서는 단지 8%에서 안면신경진탕이 있었다고 하였다. 저자들의 경우에서도 양수술 방법간에 재발율의 차이는 없었으며, 천엽절제술 이상의 술식에서는 33.3%의 수술후 합병증을 보인 반면, 단순 종양 절제술에서는 단지 12.5%의 합병증발생을 보여 단순 종양 절제술이 수술후 재발의 증가없이 합병증을 줄이는 효과가 있다고 생각되었다.

저자들의 경우 평균 67.5개월 동안의 추적 관찰중에 재발은 양 수술 방법 모두에서 한 예도 없었는데, 이처럼 외국의 보고에 비하여 재발율이 낮은 이유는 첫째, 수술 전 모든 환자에서 초음파 검사 혹은 컴퓨터단층촬영 등을 실시하여 수술 전에 다발성에 대한 충분한 사전 조사가 있었으며, 둘째, 단순 종양 적출술시에 정상 이하선 조직을 일부 포함하여 수술중에 있을 수 있는 tumor spillage를 막았고, 셋째는 저자들의 추적 관찰 기간이 아직은 짧은 점을 들 수 있겠다.

결 론

대부분의 Warthin씨 종양은 수술전, 혹은 수술중에 임상적 특징, 영상 조영술, 세침흡입술, 수술 소견이나 이들의 조합에 의하여 진단이 가능한 경우가 많으며, 만약 이하선내에 단일 종양만이 있는 경우에는 이하선절제술보다는 단순종양적출술을 시행해도 무방하리라고 사료된다.

References

- 1) Hildebrand O : *Über angeborene epitheliale cyten und fisteln des Hales.* Arch fklin Cbir. 49 : 167, 1895
- 2) Albrecht H, Artz L : *Beitrage zur Frage der gewebverirrng papillare cystadenoma in Lymphdrusen.* Z Pathol 4 : 47-69, 1910
- 3) Batsakis JG : *Pathology consultation ; Carcinoma ex papillary cystadenoma lymphomatosum ; malignant Warthin's tumor.* Ann Otol Rhinol Laryngol 96 : 234-235, 1987
- 4) Chaudhry AP, Gorlin RJ : *Papillary cystadenoma lymphomatosum(Adenolymphoma) ; A review of the literature.* Am J Surg 95 : 923-931, 1958
- 5) Ebbs SR, Webb AJ : *Adenolymphoma of the parotid ; Aetiology, diagnosis and treatment.* Br J Surg 73 : 627-630, 1986
- 6) Heller KS, Attie JN : *Treatment of Warthin's tumor by enucleation.* Am J Surg 156 : 294-296, 1988
- 7) Kotwall CA : *Smoking as an etiologic factor in the development of Warthin's tumor of the parotid gland.* Am J Surg 164 : 646-647, 1992
- 8) Lamelas J, Terry JH Jr, Alfonso AE : *Multicentricity and increasing incidence in women.* Am J Surg 154 : 347-351, 1987
- 9) Monk JS Jr, Church JS : *Warthin's tumor ; A high incidence and no sex predominance in central Pennsylvania.* Arch Otolaryngol Head Neck Surg 118 : 477-478, 1992
- 10) Pava SDL, Knutson GH, Mukhar F, Pickren JW : *Squamous cell carcinoma arising in Warthin's tumor of the parotid gland.* Cancer 18 : 790-794, 1965
- 11) Snyderman C, Johnson JT, Barnes EL : *Extraparotid Warthin's tumor.* Arch Otolaryngol Head Neck Surg 94 : 169-175, 1986
- 12) Warthin AD : *Papillary cystadenoma lymphomatosum.* J Cancer Res 13 : 116-125, 1929
- 13) Woods JE, Chong GC, Beahrs OH : *Experience with 1360 primary parotid tumors.* Am J Surg 130 : 460-462, 1975
- 14) Yoo GH, Eisele DW, Askin FB, Driben JS, Johns ME : *Warthin's tumor ; A 40-year experience at the Johns Hopkins Hospital.* Laryngoscope 104 : 799-803, 1994
- 15) Zappia JJ, Sullivan MJ, McClatchey KD : *Unilateral multicentric Warthin's tumor.* J Otolaryngol 20(2) : 93-96, 1991