

이하선에 발생한 피부침습을 동반한 거대 다형성선종 1예

순천향대학교 의과대학 이비인후과학교실, 해부병리학교실*

박진규 · 이종대 · 이재형 · 박재홍 · 이용만 · 권계원* · 고윤우

= Abstract =

A Case of Huge Pleomorphic Adenoma with Skin Invasion in the Parotid Gland

Jin Gyu Park, M.D., Jong Dae Lee, M.D., Jae Hyung Lee, M.D., Jae Hong Park, M.D.,
Yong Man Lee, M.D., Kye Won Kwon, M.D.,* Yoon Woo Koh, M.D.

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery and Pathology,*
Soonchunhyang University, College of Medicine, Bucheon, Korea

Pleomorphic adenoma is the most common benign tumor in the parotid gland and a parotidectomy with preservation of the facial nerve is a widely accepted treatment. We experienced a case of huge pleomorphic adenoma arising in the parotid gland with suspicious skin invasion. This present case was 67-year-old male presenting huge parotid mass (12×7cm) that has been present for 30 years and this tumor showed rapid-growing nature recently. The overlying skin surface was ulcerated with serous discharge and tightly adherent to the mass. The risk of malignant transformation of a pleomorphic adenoma increases with the duration of disease. The preoperative tentative diagnosis was carcinoma ex pleomorphic adenoma in the parotid gland. The initial pathologic diagnosis of fine needle aspiration biopsy was unsatisfactory smear. After parotidectomy, the histologic examination revealed that the parotid tumor was benign pleomorphic adenoma. We present a case of huge pleomorphic adenoma with skin invasion in the parotid gland with review of literatures.

KEY WORDS : Pleomorphic adenoma · Parotid gland.

서 론

타액선 종양은 전체 두경부종양의 약 3% 내지 4%를 차지하며 이 중 약 70%가량이 이하선에 발생하는 것으로 알려져 있다. 이하선에 발생하는 종양의 대부분은 양성종양이며 약 20%만이 악성종양이다. 다형성 선종(pleomorphic adenoma)은 이하선에 발생하는 양성 종양 중 80%의 가장 높은 발생빈도를 보이는 종양으로 악성 변화는 드문 것으로 알려져 있다¹⁻³⁾. 대부분 종괴의 크기가 작은 상태에서 발견되기 때문에 비교적 수술적 절제가 용이한 것으로 알려져 있지만 장기간 방치된 경우는 종양이 지속적으로 성장하여

거대한 종괴를 형성할 수 있다⁴⁾⁶⁻⁹⁾. 이 경우 악성 종양으로 변화되어 다형성선종기시암종(carcinoma ex pleomorphic adenoma)이 발생할 수 있다고 알려져 있다⁹⁾¹⁰⁾. 본 저자들은 최근에 약 30년간 서서히 자란 거대 이하선종양으로 내원하여 초진시 다형성선종기시암종을 의심하였으나 수술적 치료 후 이하선에 발생한 다형성선종으로 확진된 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

67세 남자환자가 내원 30년 전부터 좌측 이하선 부위에 지속적으로 성장하는 종괴가 촉지되었으나 별 치료없이 지내다가 최근 본원 외래에 내원하여 이하선부위의 다형성선종 혹은 다형성선종기시암종 의심하에 경부 전산화단층촬영 시행 후 수술 예정이었으나 수술 거부 후 지내시던 중 1년 만에 갑자기 크기가 증가하고 종괴 주위의 피부 발적 및 분

교신저자 : 고윤우, 420-767 경기도 부천시 원미구 중동 1374
순천향대학교 의과대학 이비인후과학교실
전화 : (032) 621-5438, 5015 · 전송 : (032) 621-5016
E-mail : ywkohent@schbc.ac.kr

비물이 발생하여 다시 본원 외래에 내원하였다. 과거력이나 가족력상 특이 사항은 없었으며, 내원 당시 문진상 거대 종괴와 피부 분비물에 의한 경부 불편감 외에는 특이한 증상은 호소하지는 않았다. 이학적 검사상 좌측 이하선부위 및 측경부에 걸쳐 피부 발적과 분비물을 동반하며 종괴주위를 싸고 있는 피부에는 다발성의 피부결절이 촉지되었으며 종괴는 비교적 경계가 분명하였고 종괴를 촉진시 주위조직과



Fig. 1. Preoperative photograph showing a huge parotid mass with erythema and serous discharge on overlying skin and no facial palsy.

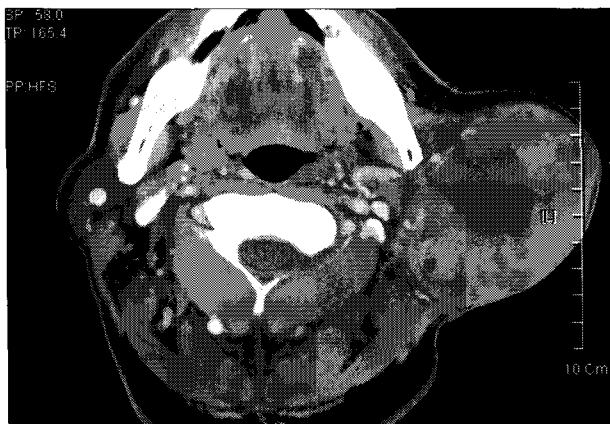


Fig. 2. Neck CT scan showing a huge parotid mass with central necrosis with suspicious skin invasion.



Fig. 3. Intraoperative photograph. Note that incision was designed to resect the overlying skin.

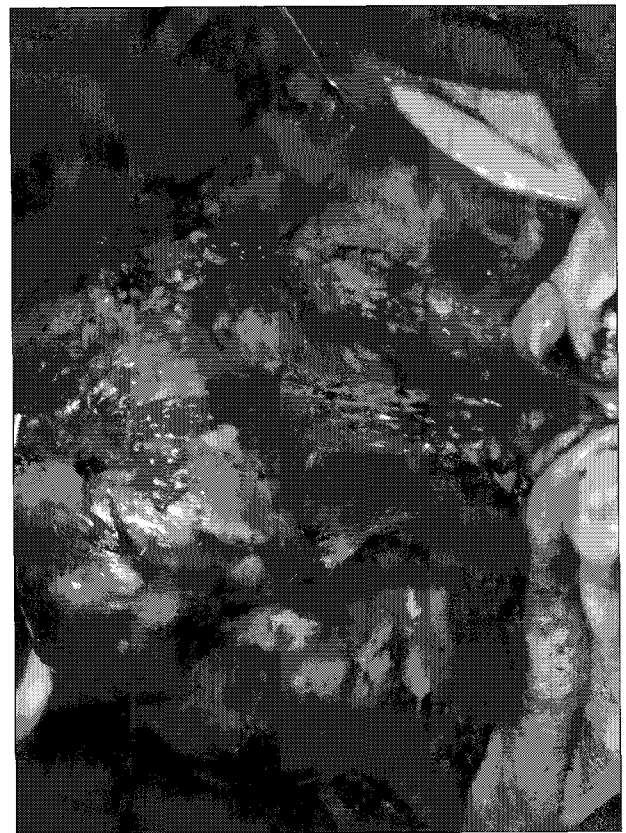


Fig. 4. Intraoperative photograph. The trunk of facial nerve was identified via posterior approach.

는 비교적 가동성이 자유로웠으나 종괴 위의 피부는 고정되어 있었다. 종괴의 크기는 약 12×17cm으로 측정되었으며 압통을 호소하지는 않았다. 또한 안면신경의 침습을 시사하는 좌측 안면마비 소견은 관찰되지 않았다. 그 외의 경부에 촉지되는 림프절은 없었다(Fig. 1). 첫 내원시 시행한 경부 전산화단층촬영상 주로 좌측 이하선의 천엽과 심엽에 걸쳐 주위 조직과의 경계가 비교적 분명한 종괴가 관찰되었으며, 종괴의 내부에는 일부 낭성괴사가 동반된 양상으로 흡쇄유돌근을 후방으로 밀고있는 양상이었다(Fig. 2). 종괴는 유양돌기 기시부에서부터 갑상연골의 중간부위에 걸쳐 관찰되었다. 그 외 갑상선 및 인두, 후두는 정상 소견이었으며, 경부 림

프절 종대 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 2). 세침흡인세포검사는 첫 내원시 시행하였으나 결과는 세포의 수가 너무 적어 진단이 불가능한 것으로 보고되었으며 1년후 다시 내원하였을 때는 환자가 경제적인 이유로 전산화단층촬영 및 세침흡인세포검사 등을 거부하여 시행치 못하였다. 수술은 전신마취하에 좌측 이하선 전절제술을 시행하였으며 발적과 결절이 동반된 종괴위의 피부를 함께 절제하였다(Fig. 3). 수술 당시 피부가 종괴에 의하여 심하게 늘어나 있었기 때문에 상당량의 피부절제후에도 일차봉합이 가능하였다. 수술 소견상 좌측 이하선의 천엽에서 발생한 것으로 추정되는 약 12×17cm 크기의 주위 조직과의 경계가 분명한 종괴가 관찰되었으며, 안면신경뿐 아니라 주위 조직으로의 침습 소견은 없었다. 전이가 의심되는 경부 림프절종대도 관찰되지 않았다. 수술 중 안면신경의 확인 및 박리, 보존은 안면신경간으로부터 외측으로 접근하는 후방 접근법을 이용하였다(Fig. 4, 5). 적출된 종괴는 육안소견상 피막이 잘 형성되어 있었으며 절단면상 종양의 내부에는 일부 출혈 내지는 낭성변화를 의심할 만한 소견이 관찰되었다(Fig. 6). 조직병리학적 소견상 주위 조직과 경계가 분명한 고형 종괴였으며, 두

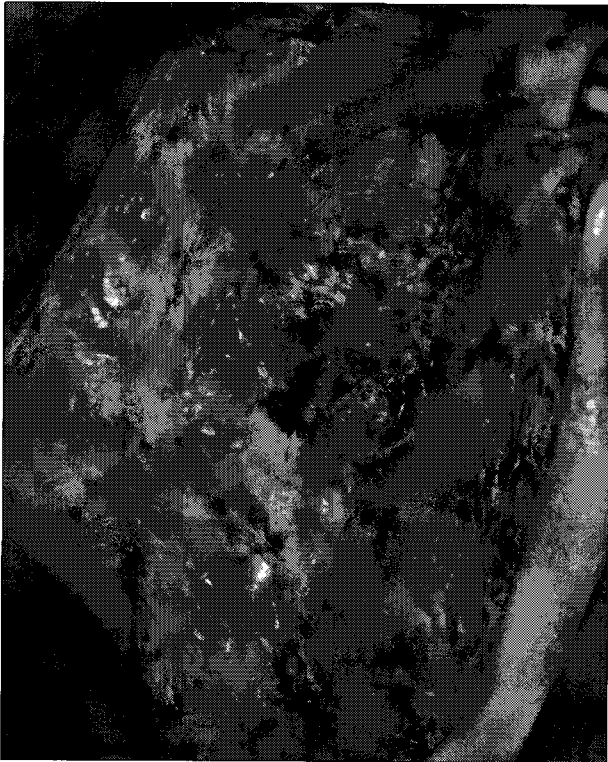


Fig. 5. Intraoperative photograph. Note that branches of facial nerve was identified and well preserved.

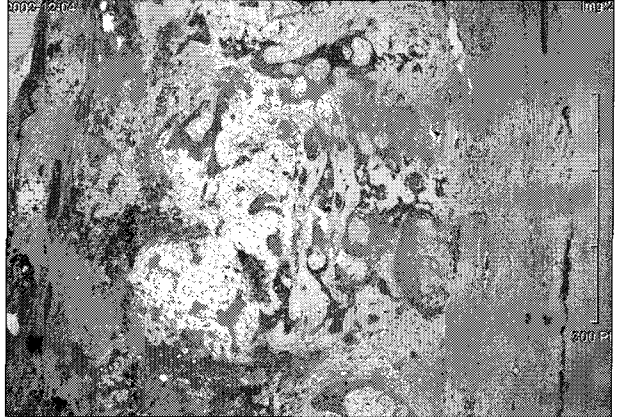


Fig. 7. Microscopic finding shows a well encapsulated margin(H & E, ×40).

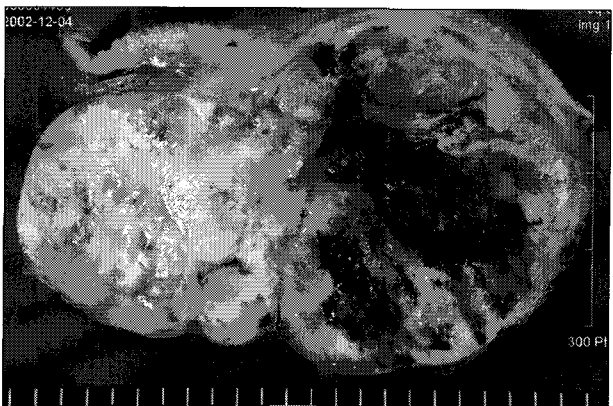


Fig. 6. Gross finding. The mass showed tan-colored lobulated cut surface with hemorrhagic necrosis.

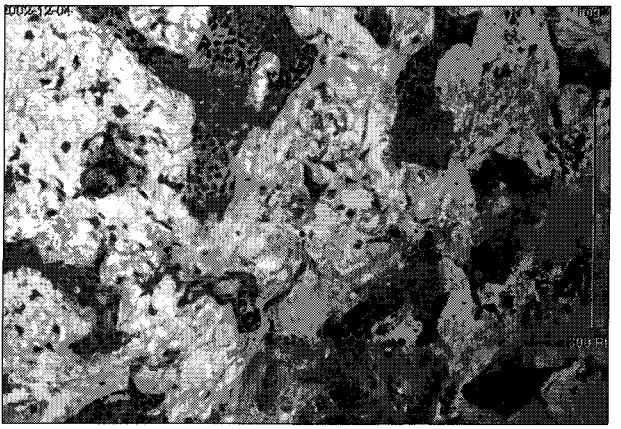


Fig. 8. Microscopic finding shows irregularly arranged fascicular myoepithelial cells in the myxoid stroma(H & E, ×200). There is no evidence of malignancy.



Fig. 9. Postoperative photograph showing no facial palsy (A : frontal view, B : oblique view).

꺼운 섬유 조직 및 얇은 피막에 의해 덮혀 있었고 피막의 침윤소견은 보이지 않았으며 내부는 고형의 다발성 결절 및 낭성 변화를 보이는 피사소견이 관찰 되었다. 조직병리학적 소견상 악성화를 의심할 만한 소견은 관찰되지 않아 다형성 선종으로 진단하였다(Fig. 7, 8). 환자는 수술 후 2년째인 현재까지 재발 및 안면신경 마비 등의 소견 없이 외래에서 추적 관찰중이다(Fig. 9).

고 찰

이하선의 다형성선종은 병리조직학적으로 양성종양이며 상피세포 및 증배엽성 조직으로 이루어져 있기 때문에 혼합종(mixed tumor)이라고도 불린다³⁾. 이 세포들은 점액양, 섬유양, 연골양조직을 산출한다고 알려져 있다. 다형성선종은 가장 흔한 양성 타액선 종양으로 대타액선 중에서 이하선에서 흔히 발생하지만 드물게 악하선 및 설하선에서도 발생하며 소타액선 중에는 구개에서 비교적 흔히 발생한다³⁾⁵⁾. 이 종양은 무통성으로 서서히 자라는 피포성 종양으로 수술 후 재발은 약 5%정도이며 전이는 드문 것으로 알려져 있다³⁾⁴⁾⁶⁾.

호발연령은 20~40세에 호발하며, 성별로 보면 여자에서 1.5~2배 정도 많이 발생한다³⁾. 임상적으로는 대부분 안면신경 바깥의 천엽의 꼬리부분에서 자라기 시작하여⁶⁾ 오랜 시일을 두고 서서히 증식하는 종양으로 알려져 있고 성장속도는 일정하지 않으며 특별한 증상없이 긴 경과를 취하기도 한다¹⁰⁾. 이 종양의 임상적 진단은 용이하지 않으며 문진과 이학적 검사상으로 추정할 수 있으나 확진은 조직병리학적

으로 이루어진다⁶⁾⁷⁾¹⁰⁾. 세침흡인세포 검사법은 종양의 조직학적 성향에 대한 정보를 제공할 수 있지만 정확한 진단을 할 수 없으며 여러 위험요소가 있다. 특히 악성화된 상태이거나 낭성 변화를 동반한 경우에 주변으로 파급되어 수술 후에도 재발가능성이 높아질 수 있다⁷⁾.

다형성선종의 치료는 수술적 적출법과 방사선치료 등이 있으나 방사선 치료에 저항성이 있고 장기간 방치된 경우 악성으로 전환될 가능성이 높으며 불완전절제로 인한 재발가능성이 높아 잔여조직없이 외과적으로 완전 적출하는 것이 가장 좋은 방법이라고 알려져 있다³⁾⁴⁾⁷⁾¹⁰⁾. 다형성선종은 대부분 종피의 크기가 작은 상태에서 발견되므로 수술적 절제가 용이하지만 오랜 기간 방치하였을 때는 악성으로의 변화 및 거대 종피를 형성하여 완전 절제가 힘들어지고 이에 따른 재발 가능성과 수술 후 합병증의 위험도가 증가하게 된다⁴⁾⁶⁾. 본 증례에서도 환자가 약 30년간 수술적 치료를 거부한 채 종양을 방치하여 거대화가 되었고 또한 최근 1년 사이에 성장속도가 빨라지고 주위피부에 발적 및 결절이 생긴 점으로 미루어 다형성선종의 악성화, 즉 다형성선종기시암종을 의심하였다. 다형성선종기시암종은 기존의 다형성선종에서 발생한 악성종양으로서 상피세포에서만 유래한 것이어야 하며 병리조직학적으로 다형성선종내에 선암, 미분화암종, 편평세포암종 등의 악성 종양세포가 파괴적이고 침습적인 증식 양상을 띠며 이 중 일부분만 나타나기도 하고 거의 대부분이 악성 종양세포로 치환되기도 한다¹¹⁾. 양성 다형성선종의 약 3%내지 4%에서 발생할 수 있으며 종양의 방치 기간에 따라 위험도가 증가한다. 즉 첫 5년간은 그 위험도

가 1.5%이지만 15년 이상 지속 된 경우에는 약 9.5%로 그 위험도가 증가한다고 한다²⁾¹³⁾. 주위조직에 침습하지 않은 비침습성 암종은 완전한 외과적 적출술만으로도 예후가 좋지만 주위조직에 침습한 침습성 암종은 침습의 정도에 따라 8mm이상 침습한 경우에는 5년 생존율이 50%이하로 감소하게 된다. 물론 이 경우 국소 및 전신 전이가 일어날 가능성도 있으며 수술 후 방사선 치료가 필수적이다. 평균 5년 생존율이 40%이고 10년 생존율이 24%로 다른 타액선 암종에 비해 예후가 좋지 않다¹⁴⁾. 그러나 본 증례에서는 최종적으로 다형성선종에 기시한 암종을 의심할 만한 병리학적 소견이 발견되지 않아 다형성선종으로 확진되었으며 주위 피부의 침습이 의심되었던 소견도 악성화에 의한 침습이 아닌 종양의 크기가 심하게 증가되어 나타난 소견으로 사료되었다. 이하선 절제술후 발생할 수 있는 합병증으로는 안면신경 마비, Frey씨 증후군, 타액루, 혈중등이 있으며, 이 중 안면신경 마비가 가장 많고 비록 일시적인 마비일지라도 환자에게 심한 고통을 줄 수 있으므로 수술과정 중 이하선의 표재엽과 심부엽사이에 위치한 안면 신경을 확인하고 보존하는 것이 매우 중요하다⁶⁾⁸⁾. 여러 연구에 의하면 종양이 악성인 경우, 재수술인 경우, 종양의 크기가 4cm 이상인 경우에 안면신경 마비의 발생율이 높은 것으로 나타났다¹⁵⁾¹⁶⁾.

그러나 최근 전산화단층촬영, 자기공명영상, 초음파의 발달 등으로 종양의 위치 및 크기에 대한 정확한 정보를 얻을 수 있고 미세 수술 등의 수술기법이 발달함에 따라 안면신경의 손상없이 완전 절제가 더욱 용이하게 되었다⁶⁾⁷⁾. 또한 종괴의 크기가 매우 크더라도 양성 종양인 경우 주위로의 침습이 적고 피막형성이 잘 되어있기 때문에 안면신경의 손상없이 완전절제가 가능하다. 본 증례에서는 비록 종괴의 크기가 거대하였지만 촉진시 가동성이 우수하여 술전에 주위조직으로의 유착은 심하지 않을 것으로 판단하고 수술에 임하였다. 또한 전산화 단층촬영소견에서도 종양의 성장이 주로 외측으로 이루어져 이하선의 침엽이나 부인두강으로 침습한 소견은 뚜렷하지 않았다. 따라서 수술시 비교적 용이하게 안면신경의 분지를 확인할 수 있었으며 주위조직과의 유착이 심하지 않아 종양의 완전적출이 가능하였다. 수술시 종양외측의 피부를 상당부분 절제하였으나 오랜 기간에 걸쳐 서서히 종양이 자라면서 피부가 팽창하여 피부절제 후 일차봉합이 가능하였다.

결론적으로 이하선에 발생한 다형성선종은 장기간 치료없이 지낸 경우 악성으로의 변환이 가능하고 양성이라도 지속적으로 성장하여 거대 종괴를 형성할 수 있으며 안면신경 마비를 일으키기도 한다. 이러한 경우에는 수술 후 재발 및 안면신경 마비 등의 합병증의 발생 위험도가 높아서 수술적 접

근을 결정하기가 쉽지 않다. 저자들은 다형성선종기시암종의 가능성이 높았고 피부침습을 동반하였던 거대 이하선 다형성선종 1예를 이하선전절제술 및 피부절제술을 통하여 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어 : 다형성 선종 · 이하선.

References

- 1) Shim YS, Oh GK, Lee YS : A clinical study of salivary Gland. *Korean J otolaryngol.* 1990 ; 33 : 329-338
- 2) Oh GK, Lee GH, Chu MJ : A clinical study of mixed tumor on salivary gland. *Korean J Otolaryngol.* 1992 ; 35 : 632-639
- 3) Won JH, Kwang SH, Yoo SL, Kim KI : A clinical study on Salivary gland tumor. *Korean J Otolaryngol.* 1995 ; 38 : 2050-2057
- 4) Chang KM, Shim YS, Oh KK, Lee YS : A clinical study on sub-mandibular gland tumor. *Korean J Otolaryngol.* 1994 ; 37 : 1066-1074
- 5) Kim YM, Cho JI, Lee SJ, Kim JM : A case of adenosquamous carcinoma ex pleomorphic adenoma of hard plate. *Korean J Otolaryngol.* 2001 ; 44 : 1231-1234
- 6) Buenting JE, Smith TL, Holmes DK : Giant pleomorphic adenoma of the parotid gland : case report and review of the literature. *Ear Nose Throat J.* 1998 ; 77 (8) : 634, 637-638, 640
- 7) Nishimura T, Furukawa M, Kawahara E : Pleomorphic adenoma of parotid gland with cystic degeneration. *J Laryngol Otol.* 1994 ; 108 (5) : 446-448
- 8) Lomeo PE : Giant pleomorphic adenoma of the parotid gland. *Ear Nose Throat J.* 1996 ; 75 (7) : 402
- 9) Talmi YP, Halpren M, Finkelstein Y, Zohar Y : True malignant mixed tumor of the parotid gland. *J Laryngol Otol.* 1990 ; 104 (4) : 360-361
- 10) Olsen KD, Lewis JE : Carcinoma ex pleomorphic adenoma : a clinicopathologic review. *Head Neck.* 2001 ; 23 (9) : 705-712
- 11) Batsakis JG, Regezi JA : The pathology of head and neck tumor : Salivary glands, part 4. *Head Neck.* 1979 ; 1 : 340-349
- 12) Seifert G : Histopathology of malignant salivary gland tumours. *Eur J Cancer B Oral Oncol* 28B, 1992 : 49
- 13) Seifert G, Sobin LH : The World Health Organization's histological classification of salivary gland tumours : a commentary on the second edition, *Cancer.* 1992 ; 70 : 379
- 14) Spiro RH, Huvos AG, Strong EW : Malignant mixed tumor of salivary origin : a clinicopathologic study of 146 cases. *Cancer.* 1977 ; 39 : 388-396
- 15) Watanabe Y, Ishikawa M, Shojaku H, Mizukoshi K : Facial nerve palsy as a complication of parotid gland surgery and its prevention. *Acta Otolaryngol (Stockh).* 1993 ; 504 : 137-139
- 16) Nichols RD, Stine PH, Bartschi LR : Facial nerve function in 100 consecutive parotidectomies. *Laryngoscope.* 1979 ; 89 : 1930-1934