

## 악하선관으로 연결되는 주설하관을 가진 설하선과 이에 발생한 선양낭성암종 1례

서울대학교 의과대학 이비인후과학교실,\* 서울대학교 보라매병원 병리과,\*\* 이비인후과\*\*\*  
문성중\* · 정영호\* · 장미수\*\* · 진홍률\*,\*\*\*

= Abstract =

### A Case of Adenoid Cystic Carcinoma of Sublingual Gland Forming a Major Sublingual Duct, which Empties into Wharton's Duct

Sung Joong Moon, M.D.,\* Young Ho Jung, M.D.,\*  
Mee-Soo Chang, M.D.,\*\* Hong-Ryul Jin, M.D. \*,\*\*\*

Department of Otorhinolaryngology,\* Seoul National University College of Medicine, Seoul, Korea  
Department of Pathology,\*\* Otorhinolaryngology,\*\*\* Seoul National University Boramae Hospital, Seoul, Korea

Tumors rarely arise in the sublingual salivary glands. They should be considered malignant until proved otherwise. Adenoid cystic carcinoma is most commonly encountered malignant tumor of the sublingual gland. We report a case of adenoid cystic carcinoma arising from the sublingual gland. Moreover, the sublingual gland had anatomic variation of main duct (Bartholin's duct) which is connected to Wharton's duct.

**KEY WORDS** : Sublingual gland · Adenoid cystic carcinoma · Salivary ducts.

## 서 론

설하선에 발생하는 종양은 타액선에서 발생하는 종양의 0.5~1%를 차지하는 드문 종양이지만, 설하선 종양의 80~90%가 악성으로, 전체 타액선암 중에서는 1.5%정도를 차지한다고 보고되어 있다<sup>1)</sup>. 하지만 연구자에 따라서는 거의 4,000명의 타액선암 환자중에서 18명만이 설하선 기원일 정도로 매우 드문 것으로 알려져 있다<sup>2)</sup>.

저자들은 설하선의 선양낭성암종 1례를 수술로 치료하였고, 수술시 설하관에서 주설하관을 형성하여 악하선관으로 연결되는 소견을 발견하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

## 증 례

환자는 54세 여자로서 약 한달 전부터 서서히 커지는 좌측

구강내 구강저의 무통성 종물을 주소로 내원하였다. 저리는 느낌이나 감각이상의 증상도 없었다. 과거력과 가족력에서 특이 사항은 없었다. 양수축진법을 사용한 신체적 검진 소견에서 좌측 구강저에 3×4cm 크기의 단단한 종물이 관찰되었다. 경부 림프절은 축적되지 않았으며 다른 전신 검사에서 특이 소견은 관찰되지 않았다.

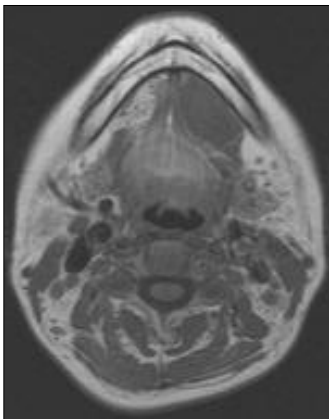
전산화단층촬영상 좌측 설하선 부위에 불균질한 조영증강을 보이며 악성종양을 시사하는 3.5cm 크기의 병변을 관찰할 수 있었다(Fig. 1). 그 외 경부림프절의 병변은 없었고, 수술 전 시행한 세침흡인세포검사에서는 선양낭성암종이 의심되었다. 주변 연부조직과의 관계를 더 명확히 하기 위해 자기공명영상을 시행하였다. 종양은 T2WI에서(Fig. 2) 전반적으로 고신호 강도를 보이고 T1WI에서(Fig. 3) 근육과 비슷한 신호강도를 보였다. 주변의 구강저 근육들을 밀어내는 소견은 보였으나 침윤의 증거는 없었으며, 하악골의 골막 및 골수에도 종양의 침범은 없는 것으로 판



**Fig. 1.** Preoperative axial CT scan of the neck. CT scan shows left sublingual gland enlargement with heterogenous enhancement.



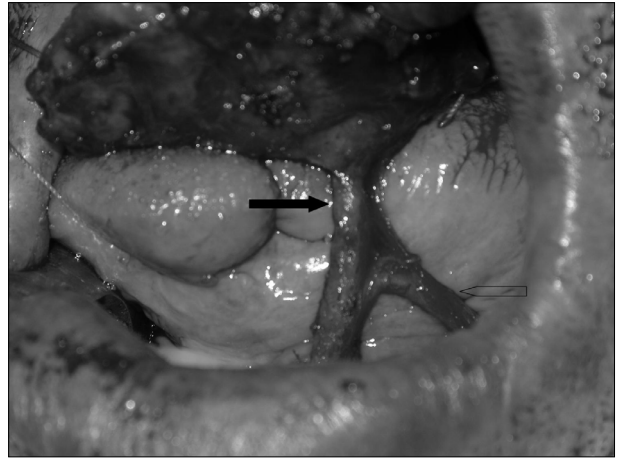
**Fig. 2.** Preoperative MRI. T2 weighted image shows a mass with high signal intensity in left sublingual gland area.



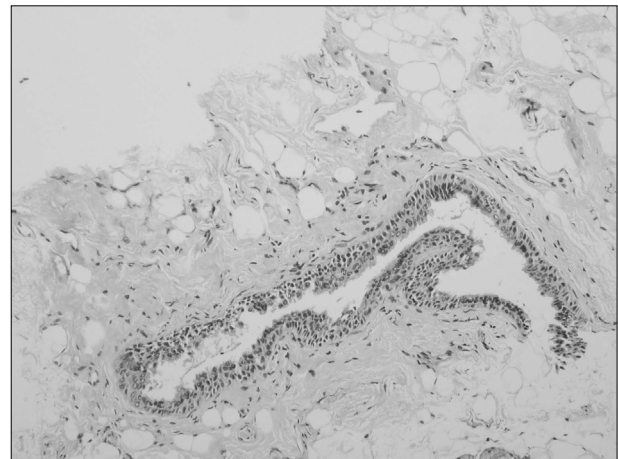
**Fig. 3.** Preoperative MRI. T1 weighted image shows a mass with signal intensity of muscle in left sublingual gland area.

단되었다. 임상적으로 원격전이를 시사하는 소견은 없었다.

이상의 소견을 종합하여 좌측 설하선에 발생한 T2NOM0, 2병기(stage 2)에 해당하는 선양낭성암종 의심 하에 구강 내 접근법으로 설하선 절제술을 시행하였다. 종양은 주변 조직과 잘 분리되어있어, 박리하여 제거하는데 큰 어려움은 없었으며, 설하신경, 설신경, 악하선관의 손상없이 성공적으로



**Fig. 4.** Intraoperative photo. Left sublingual gland is forming a major sublingual duct (black arrow), which empties into Wharton's duct (empty arrow).



**Fig. 5.** Light microscopic finding of frozen section. This photo shows a part of major sublingual duct (Bartholin's duct) (H&E, x100).

설하선을 절제하였다. 설하선을 제거하는 과정에서 설하선에서 나오는 주설하관을 발견하였고, 이 주설하관이 악하선관과 연결되는 것을 발견하였다(Fig. 4). 주설하관을 악하선관과 연결되는 부위 전에서 결찰하였고, 절제면에 대해 동결절편검사를 시행하여 종양이 없음을 확인하였다(Fig. 5). 술후 악하선 종창과 같은 특별한 문제나 합병증 없이 퇴원하였다.

병리조직 검사에서는 3.5×3.0×1.0cm 크기의 선양낭성암종으로 확진되었고, 사상형과 관상형이 혼합되어있는 양상이었고 고형은 발견되지 않았다(Fig. 6). 절제면 또한 깨끗하였다. 추가적인 방사선치료는 하지 않기로 하였다.

## 고 찰

설하선에서 타액은 약 8~20개의 작은 관(Rivinus' duct)을 통해 구강 내로 분비되며, 때로는 여러 개의 관이 합쳐

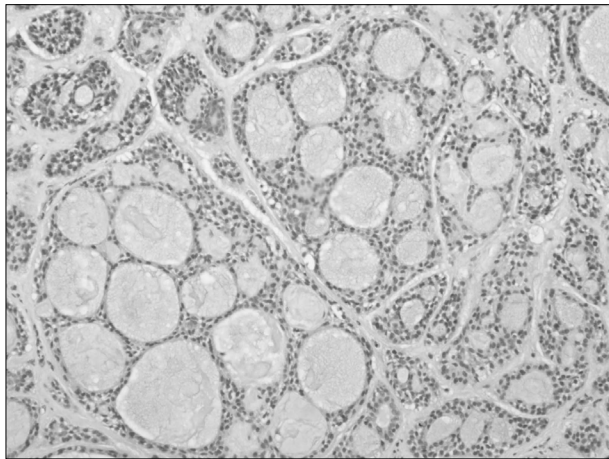


Fig. 6. Light microscopic findings. The adenoid cystic carcinoma component in sublingual gland shows mixed patterns of the tubular type and the cribriform type (H&E, x100).

저 주설하관(Bartholin's duct)을 형성하여 악하선관으로 배출되기도 하는 것으로 알려져 있다<sup>3)</sup>.

설하선에 발생하는 가장 흔한 악성종양은 선양낭성암종으로 36%에 해당하고<sup>4)</sup>, 그 다음으로는 점액표피양암종이다<sup>2)</sup>.

선양낭성암종은 현미경적으로 다염색성핵과 호산구성 세포질을 가지는 작은 원형세포로 구성된다. 세포는 전형적으로 다발이나 판모양으로 배열되고, 조직학적으로 체모양의 구조를 가져 과거에 cylindroma로 명명되기도 하였다<sup>5)</sup>. 병리조직학적으로 관상형, 사상형, 고형으로 구분하며, 남성 공간이 없는 고형의 경우 비정형 세포를 보이며 예후가 관상형이나 사상형의 경우보다 나쁘고, 특히 고형부분이 전체 종양의 30%를 넘는 경우에 예후가 좋지 않다<sup>6)</sup>.

일반적으로 설하선의 종양은 50대에서 가장 많이 발견되고 성별에 따른 빈도의 차이는 없는 것으로 알려져 있다<sup>2)</sup>. 저자에 따라서는 종례 수가 제한되어 있기는 하지만 여성에서 조금 흔한 결과를 보이기도 했다<sup>7)</sup>. 임상양상은 구강저에서 만져지는 무증상의 종물로 발견이 되고<sup>8)</sup>, 그 외에 통증이나 치과보철물 착용시 불편감, 혀의 저린 느낌 등의 증상을 나타내기도 한다<sup>9)</sup>.

구강저의 종물의 경우 하마종(ranula) 혹은 그외 침샘관과 연관된 점막하 종물 등의 양성질환으로 간과될 우려가 있으므로, 이곳의 병변을 볼 때에는 항상 종양의 가능성에 대해 의심을 가지고 있어야 한다<sup>9)</sup>.

구강저의 종물을 발견했을 때, 그 기원을 알기 위해서는 설하선에서 발생했는지 소타액선에서 발생했는지 구별하는 것이 중요하다<sup>10)</sup>. 보통 임상양상만으로는 그 기원을 알기는 쉽지 않으므로<sup>11)</sup>, CT 혹은 MRI, 수술소견, 병리소견과 함께 생각하는 것이 필요하다<sup>7)</sup>.

치료에 있어서는 수술이 제일 중요하다<sup>9)12)</sup>. 병변의 크기에 따라서 수술의 범위 및 방법은 달라진다. 필요한 경우

하악골의 구역 혹은 마디절제(marginal or segmental mandibulectomy)와 구강저 재건술을 시행한다. 림프절 전이는 선양낭성암종에서 비교적 드물며, 4~13%에서 발생한다<sup>13)</sup>. 그러므로 경부에 대한 수술은 임상적으로 림프절전이가 명백하거나 조직학적으로 고형부분이 많거나 혹은 크기가 큰 경우에 시행될 수 있다.

선양낭성암종은 방사선치료에 잘 반응하지만 수술적으로 완전히 제거되었을 경우 방사선치료의 정당성은 판단하기 어렵다. 많은 경우에 수술 후 장기간의 추적관찰 과정에서 무병생존이 길었기 때문이다<sup>14)</sup>. 술후 방사선 치료는 진행된 병기의 환자 혹은 악성도가 높은 종양에서, 수술 절제면에 종양이 남아있거나 가까운 경우에 시행할 수 있다<sup>9)14)</sup>.

Silverman 등의 연구에서도 T4와 같은 진행된 T병기의 환자나 수술 절제면에 종양이 남아있는 경우 술 후 방사선 치료는 적절한 적응증으로 판단되었으나, T1, T2와 같은 초기 T병기의 환자로서 수술 절제면이 깨끗할 경우 술 후 방사선 치료는 필요하지 않다고 기술하고 있다<sup>15)</sup>.

그리고 국소재발했을 때 방사선 치료를 고려한다<sup>12)</sup>. Simpson 등은 수술 후 국소재발한 환자에서, 방사선치료를 할 경우 처음 진단시에 방사선치료를 시행한 경우와 같이 국소병변의 조절이 잘 되므로, 방사선 치료를 반드시 시행해야 한다고 주장하였다<sup>16)</sup>.

선양낭성암종의 원격전이는 처음 진단 당시에는 5%에서 발견되지만, 결국에는 50%에서 발생한다<sup>14)</sup>. 폐로의 전이가 41%, 뇌 22%, 경부림프절 16%, 뼈 13%, 그외 피부, 늑막, 간등으로 4% 정도 발생한다. 한편 Andersen 등은 전신전이를 가진 환자에서 치료없이 7년을 살 수도 있다고 하였다<sup>14)</sup>.

그리고 Umeda 등에 따르면 배가시간이 86에서 1,064 일로서(평균 393일), 종양의 자라는 속도를 고려할 때 이미 발견 당시 준임상적인 폐전이기가 있을 것이라는 가설을 내놓았는데<sup>17)</sup>, 이를 검출하기 위해 선양낭성암종 환자에서 일률적으로 폐 CT를 사용하는 데에는 아직 연구가 부족하고, 폐전이기가 있을 경우 유용한 치료법이 없는 현재, 준임상적인 폐전이를 찾고자 노력하는 것은 딜레마라 할 수 있다. 전신전이에 대한 치료와 생존률을 높이기 위한 방법으로서 결국 항암화학요법의 역할이 중요할 것으로 생각되며 앞으로 발전시켜 나가야 할 것으로 생각된다<sup>18)</sup>.

본 증례의 경우 조직학적으로 고형성분이 없이 사상형과 관상형으로 이루어져있고, T2의 병기로 수술 절제면 또한 깨끗하므로 추가적인 방사선치료 없이 경과 관찰하면 될 것으로 생각되며, 술 후 한달째 시행한 MRI영상에서도 남아있는 종양이나 재발의 증거 없이 온전히 남아있는 주변의 정상조직들을 확인할 수 있었다. 선양낭성암종의 특성상 수년이 지나서도 재발이나 전이의 가능성이 있으므로 장기

적인 추적관찰이 요망된다.

**중심 단어 :** 설하선 · 선양낭성암종 · 침샘관.

## References

- 1) Spiro RH, Armstrong J, Harrison L, Geller NL, Lin S-Y, Strong EW: *Carcinoma of major salivary glands. Recent trends. Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1989;115:316-321
- 2) Spiro RH: *Treating tumors of the sublingual glands, including a useful technique for repair of the floor of the mouth after resection. Am J Surg.* 1995;170:457-460
- 3) Bailey BJ, Calhoun KH, Healy GB, et al: *Head & neck surgery-otolaryngology. Vol 1, 3rd ed. Philadelphia: LWW, 2001:433*
- 4) Nishijima W, Tokita N, Takooda S, Tsuchiya S, Wataname I: *Adenocarcinoma of the sublingual gland: case report and 50 year review of the literature. Laryngoscope.* 1984;94:96-101
- 5) Nascimento AG, Amaral AL, Prado LA, Klierman J, Silveira TR: *Adenoid cystic carcinoma of salivary glands: a study of 61 cases with clinicopathologic correlation. Cancer.* 1986;57:312-319
- 6) Szanto PA, Luna MA, Tortoledo ME, White RA: *Histologic grading of adenoid cystic carcinoma of the salivary glands. Cancer.* 1984;54:1062-1069
- 7) Perez DE, Pires FR, Alves Fde A, Almeida OP, Kowalski LP: *Sublingual salivary gland tumors: clinicopathologic study of six cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2005;100:449-453
- 8) Rankow RM, Mignogna F: *Cancer of the sublingual salivary gland. Am J Surg.* 1969;118:790-795
- 9) Rinaldo A, Shaha AR, Pellitteri PK, Bradley PJ, Ferlito A: *Management of malignant sublingual salivary gland tumors. Oral Oncol.* 2004;40:2-5
- 10) Lopes MA, Kowalski LP, Santos GC, Almeida OP: *A clinicopathologic study of 196 intraoral salivary gland tumors. J Oral Pathol Med.* 1999;28:264-267
- 11) Sakashita H, Miyata M, Miyamoto H, Minato H: *Adenocarcinoma originating in the sublingual gland: report of a case. J Oral Maxillofac Surg.* 1997;55:764-767
- 12) Mcfall MR, Irvine GH, Eveson JW: *Adenoid cystic carcinoma of the sublingual salivary gland in a 16-year-old female-report of a case and review of the literature. J Laryngol Otol.* 1997;111:485-488
- 13) Armstrong JG, Harrison LB, Thaler HT, et al: *The indications for elective treatment of the neck in cancer of the major salivary glands. Cancer.* 1992;69:615-619
- 14) Andersen LJ, Therkildsen MH, Ockelmann HH, Bentzen JD, Schiodt T, Hansen HS: *Malignant epithelial tumors in the minor salivary glands, the submandibular gland, and the sublingual gland. Prognostic factors and treatment results. Cancer.* 1991;68:2431-2437
- 15) Silverman DA, Carlson TP, Khuntia D, Bergstrom RT, Saxton J, Esclamado RM: *Role for postoperative radiation therapy in adenoid cystic carcinoma of the head and neck. Laryngoscope.* 2004;114:1194-1199
- 16) Simpson JR, Thawley SE, Matsuba HM: *Adenoid cystic salivary carcinoma: treatment with irradiation and surgery. Radiology.* 1984;151:509-512
- 17) Umeda M, Nishimatsu N, Masago H, et al: *Tumor-doubling time and onset of pulmonary metastasis from adenoid cystic carcinoma of the salivary gland. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1999;88:473-478
- 18) Bradley PJ: *Adenoid cystic carcinoma of the head and neck: a review. Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg.* 2004;12:127-132