

남성 유두에 발생한 투명세포 한선종의 치험례

양은정 · 김석원 · 이성준

연세대학교 원주의과대학 성형외과학교실

Clear Cell Hidradenoma in a Young Male Nipple: A Case Report

Eun Jung Yang, M.D., Sug Won Kim, M.D., Ph.D.,
Sung Jun Lee, M.D.

Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Yonsei
University Wonju College of Medicine, Wonju Christian
Hospital, Wonju, Korea

Purpose: Clear cell hidradenoma, now regarded as an eccrine sweat gland tumor on the basis of its enzyme histochemical and electron microscopic features, occurs as a solitary tumor in most instances.

Methods: A 17 year old male presented with asymptomatic nodule, which had developed on nipple with a four years of history and total excision and purse-string suture was then performed.

Results: No recurrence was observed 2 months after excision. Histologically, it showed a well circumscribed tumor composed of characteristic clear epithelial cells which are focally arranged in glandular patterns.

Conclusion: This case is unique in that the tumor developed on the young male nipple, unusual site and this report emphasizes the benefit of local excision to prevent recurrence of these tumor.

Key Words: Clear cell hidradenoma, Nodular hidradenoma

I. 서 론

결절성 한선종(nodular hidradenoma)은 종양세포의 형태학적 분화의 다양성으로 인해 투명세포 한선종(clear cell hidradenoma), 고형 낭종성 한선종(solid cystic

hidradenoma), 선단공 한선종(eccrine acrospiroma) 등 여러 가지 병명으로 알려져 왔다. 최근 면역조직학적 소견 및 전자현미경적 소견 상, 표피와 진피의 에크린 한선관과 한선으로 분화하는 종양으로, 표피 내에서 분화하는 에크린 한공종(eccrine poroma)과 진피 내에서 분화하는 에크린 나선종(eccrine spiradenoma)의 중간 단계로 생각되고 있다.¹

임상적으로 진단적 가치가 있는 소견은 없으나, 특징적인 조직학적 소견으로 진단이 가능하다. 이 종양은 신체 어느 부위에나 발생할 수 있으나, 두부 및 손, 발에 좀 더 호발한다.² 유두 유륜 복합체 및 유방에 발생한 투명세포 한선종은 국외 증례 보고가 있으나³ 그 발생률이 매우 낮으며, 국내에서는 아직 보고 된 바 없다. 이에 저자들이 청소년에서 경험한 유두에 발생한 투명세포 한선종 1례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증 례

17세된 환자는 내원 4년 전에 발생하여 서서히 커지는 우측 유두의 피하의 종양을 주소로 내원하였다(Fig. 1). 이학적 소견상, 외부 자극에 의해 반복적인 염증 소견과 삼출물이 있었으며 통증은 없었다. 감각 마비나 겨드랑 림프절 종대 소견은 없었다. 술전 조직 검사를 시행하여 양성 투명세포 한선종을 진단하였다. 종양은 유두조직 및 피부의 결손을 최소화하여 적출(total extraction)하였고, 주변 피부로 복주머니 끈 봉합(purse-string suture)을 하여 유륜을 보존하였다(Fig. 2).

육안적 소견 상 종양은 1.5×1×0.7cm 크기의 비교적 둥근 모양을 가지고 있었고 짙은 보라색으로 표면은 부드러웠으나 팽만된 소견을 보였다(Fig. 3). 병리조직 H&E 염색 소견 상 여러 개의 소엽으로 구성되었고, 고형 부위의 세포는 호염기성 세포질과 타원형의 핵을 가진 다각형 세포(polygonal basophilic cells)와 작고 진한 핵과 투명한 세포질을 가지는 투명세포(clear round cells)로 구성되어 있었다. 입방형 세포로 둘러싸인 다양한 크기의 관상구조(tubular lumen)와 초자질화된 콜라겐(collagen)을 관찰되

Received March 28, 2007

Revised May 4, 2007

Address Correspondence: Sug Won Kim, M.D., Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Yonsei University, Wonju College of Medicine, Wonju Christian hospital, 162 Ilsan-dong, Wonju-si, Gangwon-do 220-701, Korea. Tel: 033) 741-0611 / Fax: 033) 742-4022 / E-mail: sugwonkim@yumc.yonsei.ac.kr

* 본 논문은 2005년 제 58차 대한성형외과학회 학술대회에서 포스터 발표되었음.

었다(Fig. 4). 술후 2개월 삼출물, 출혈이나 결절 등의 병변은 발생하지 않았다.

III. 고 찰

투명세포 한신종은 보통 양성의 피부부속기 종양으로, 보통 직경 0.5-2cm 크기의 단발성으로 나타나며 진단을 위한

특징적인 분포나 임상 양상은 없으며, 병변은 피부색 또는 적색을 보이며 궤양이 동반되거나 삼출물이 분비될 수 있다. 또한, 환자의 20%정도에서 압통을 보이는 것으로 알려져 있다. 주로 30대에 발생하며 남녀 비는 1:1.7로, 호발 부위는 두부(30.3%), 상지(25.8%) 및 체간(20.2%)라고 한다.^{1,3}



Fig. 1. (Above) Preoperative view of prominent erythematous nodule on the male nipple. (Below) Preoperative view of the nipple.

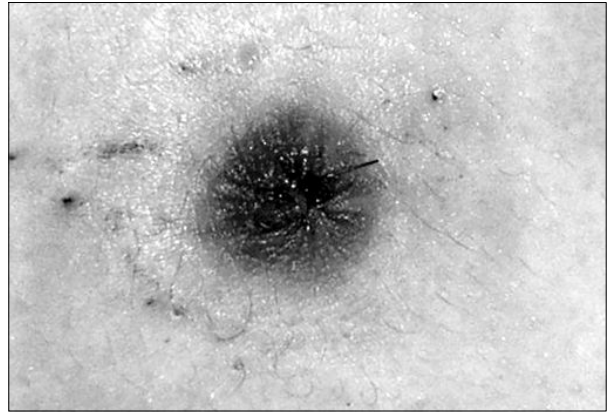


Fig. 2. Postoperative view; The mass was completely extracted and repair was accomplished with the purse-string method.



Fig. 3. A 1.5 x 1 x 0.7 cm nodule including bluish skin.

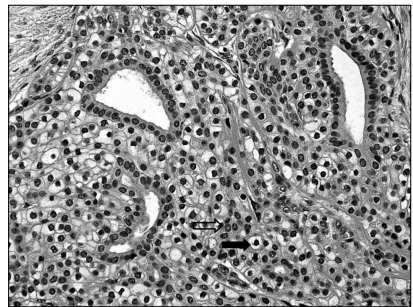
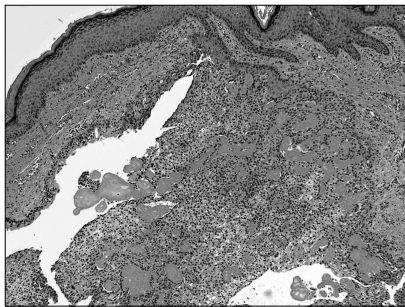
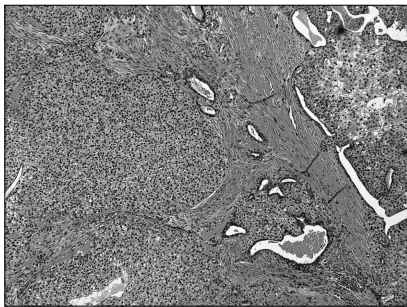


Fig. 4. (Left) The multiple lobules are composed of epithelial cells and vessels (H&E, x40). (Center) The tumor was connected to epidermis and there were focal areas of hyalinized collagen within the tumor (H&E, x40). (Right) Higher magnification (H&E, x400) shows a dense cellular infiltration composed of round cells(arrow) with abundant pale cytoplasm, basophilic polygonal cells(open arrow) with scant cytoplasm and tubular lumen.

병리조직학적으로 병변은 고형 및 낭종성 부위를 보이며 종양은 피막으로 둘러 싸여져 있지는 않으나, 여러개의 소엽으로 나뉘어져 뭉친 콜라겐으로 둘러 싸여 있다. 종양 내에서는 다양한 크기의 관상구조를 보이며, 낭종성 공간도 볼 수 있다.¹ 종양세포는 두 종류로 구성되어 있다. 한 세포는 크고 다각형이며 세포질이 투명하여 막으로 둘러싸인 투명한 공포같이 보이며, 또 다른 세포는 방추형이거나 다면체이며 호염기성 세포질을 가진다. 투명세포는 당원을 포함하여 PAS(Periodic acid-Schiff)염색 양성, 전분효소(diastase)처리 후에는 음성 소견을 보인다.¹

투명세포 한선종은 임상적으로 여러 가지 진피종양과 감별하여야 하며, 조직학적으로는 에크린 나선종, 에크린 한선종, 사구종양, 전이된 신종양, 기저세포암 등과 감별하여야 한다.¹⁴ 악성 투명세포 한선종은 주로 50세 이상에서 발생하며, 국소 재발률이 대략 50%, 원격 전이율이 약 60%로, 주위 림프절, 뼈, 장막과 피부가 흔히 침범되는 장기로 알려져 있다. 불완전 절제 시 종양의 빠른 재성장과 주위 조직 침범이 흔해 병변을 포함한 광역 절제로서 치료해야 한다.¹³ 조직학적으로는 진피 내에 다수의 소엽들로 이루어진 경계가 불분명한 종양으로 주위 조직을 흔히 침범한다. 유사분열이 흔히 관찰되며, 종양의 괴사나 높은 세포 밀집도, 현저한 세포 비정형을 보일 수 있다.¹⁵

피부로 전이된 신종양은 2.8-6.3%로 드문 편이며, 두피와 얼굴, 체간과 복부 등에 발생할 수 있다.⁴ 악성종양의 특성인 과도한 유사분열(high mitotic activity)이나 세포의 다형성(cellular pleomorphism)을 보이면서 임상적으로는 양성인 투명세포 한선종이 보고된 바 있는데⁵ 이는 세포학적 소견과 임상 양상이 항상 일치하지는 않을 수 있다는 점과 악성종양과 조직학적 소견만으로 구별하는 것은 쉽지 않음을 시사한다. 최근 연구에는 투명세포 한선종의 조직학적으로 유사한 종양에서 면역조직화학적 표지자가 감

별진단에 유용하다고 하였다(Table I).⁶ 정상 에크린 한선 세포는 S-100 protein, CEA, EMA(epithelial membrane antigen), cytokeratin에 양성을 보이며, 투명세포 한선종은 일부에서 양성을 보인다.⁶

유방에 발생하는 투명세포 한선종은 주로 유두 혹은 유륜하부에 발생하며 유선(mammary duct)에도 발생할 수 있다.² 남성의 유방은 유방실질이 적기 때문에 종양이 발생하면 피부 및 유두와 큰가슴 근막(pectoral fascia)에 가깝게 위치하여, 종양의 크기가 작더라도 전이하는 성질을 띠면, 진피의 림프선을 통해 배출되어 유륜하 림프관 열기(subareolar lymphatic plexus)나 겨드랑 림프절로 전이되기 쉽고, 초기에 원격 전이(early distant dissemination) 할 수 있다. 이에 비해 여성 유방의 주요 림프계는 유방 실질에 분포하며 진피 내 유륜하부의 림프관 열기는 덜 두드러진 역할을 한다.⁷

유두 혹은 유륜하부의 종양이나 유두의 궤양은 파제트 병이나 피부로 확장된 유방암과도 감별진단해야 한다. 여성에서 유방암이 유두에 발생하는 것은 드물고, 남성에서는 해부학적 특성상 유두 병발(48%) 및 림프절 침범(63%)의 발생빈도가 비교적 높고, 임상병기가 진행된 단계일수록 유두 발현과 높은 상관관계를 보인다. 남성 유방암은 크기가 작고, 조직학적으로 낮은 악성 변화와 높은 에스트로겐 수용체 발현을 보이는데, 피부나 유두에 발현된 경우는 림프절 침범과 낮은 생존율을 보이는 등 예후가 불량하다.⁷

투명세포 한선종은 양성 종양이지만 불완전 절제 시 깊은 진피나 피하조직에 남아 있거나 재발할 수 있으며, 대략 10% 정도에서 외과적 절제술 후 재발한다.⁸ 종양이 재발한 경우에 원발성 종양과 조직학적으로 차이가 없다. 악성 투명세포 한선종은 대부분 발생 시부터 악성으로 시작되나, 매우 드물게 투명세포 한선종에서 악성 전환이 보고된 적이 있다.⁹ 따라서 투명세포 한선종은 악성 변화의 가능성과 넓게 전이되는 침습형일 가능성, 불완전 절제에 따른 재발 등을 고려하여 완전 절제술을 시행하는 것이 필요하다.³

본 증례에서는 앞서 기술한 남성 유방의 해부학적 특징과 유두의 미용적 측면, 투명세포 한선종의 특성을 고려하여 술전 조직 검사를 시행하고, 유두 및 유륜 피부의 결손을 최소화하여 종양 전체를 적출한 후 유륜을 보존할 수 있도록 하였다. 국내 외 문헌 상 유두에 발생한 투명세포 한선종은 그 발생률이 매우 낮으며, 국내에서는 보고된 바가 없고, 더욱이 이 중 남성 유두에 발생한 증례는 없었다. 저자들은 젊은 남성 유두의 투명세포 한선종 1례를 드문 증례로 경험하고 보고하는 바이다.

Table I. Immunohistochemical Markers of Hidradenoma

Markers	Staining
Cytokeratin CAM 5.	(+)
Cytokeratin AE 1,3	(+)
Epithelial membrane Ag	(+)
CEA(Carcinoembryonic Ag)	Focally expressed
SMA(Muscle specific actin)	Focally expressed
S-100	(-)
Glial fibrillary acid protein	(-)
Desmin	(-)

REFERENCES

1. Elder D, Elennitsas R, Jaworsky C, Johnson B: *Lever's Histopathology of the skin*. 9th ed. Philadelphia Lippincott-Raven, 2005, p 907
2. Domoto H, Terahata S, Sato K, Tamai S: Nodular hidradenoma of the breast: report of two cases with literature review. *Pathol Int* 48: 907, 1998
3. Hernandez-Perez E, Cestoni-Parducci R: Nodular hidradenoma and hidradenocarcinoma. a 10-year review. *J Am Acad Dermatol* 12: 15, 1985
4. Volmar KE, Cummings TJ, Wang WH, Creager AJ, Tyler DS, Xie BH: Clear cell hidradenoma: a mimic of metastatic clear cell tumors. *Arch Pathol Lab Med* 129: 113, 2005
5. Mambo NC: The significance of atypical nuclear changes in benign eccrine acrospiromas: a clinical and pathological study of 18 cases. *J Cutan Pathol* 11: 35, 1984
6. Haupt HM, Stern JB, Berlin SJ: Immunohistochemistry in the differential diagnosis of nodular hidradenoma and glomus tumor. *Am J Dermatopathol* 14: 310, 1992
7. Joshi MG, Lee AK, Loda M, Camus MG, Pedersen C, Heatley GJ, Hughes KS: Male breast carcinoma: an evaluation of prognostic factors contributing to a poorer outcome. *Cancer* 77: 490, 1996
8. Johnson BL Jr, Helwig EB: Eccrine acrospiroma. A clinicopathologic study. *Cancer* 23: 641, 1969
9. Biddlestone LR, McLaren KM, Tidman MJ: Malignant hidradenoma: a case report demonstrating insidious histological and clinical progression. *Clin Exp Dermatol* 16: 474, 1991