

양측 이하선 비호지킨스 림프종 1예

가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실
주영훈 · 최 진 · 김민식 · 선동일

= Abstract =

A Case Report of Non-Hodgkin's Lymphoma of Bilateral Parotid Glands

Young-Hoon Joo, M.D., Jin Choi, M.D., Min-Sik Kim, M.D., Dong-IL Sun, M.D.

Department of Otolaryngology-HNS, The Catholic University of Korea, College of Medicine, Seoul, Korea

Primary non-Hodgkin's lymphoma of the salivary gland is an uncommon tumor that most often occurs in the parotid gland. In the parotid gland, malignant lymphomas are often clinically unsuspected, manifesting as non-specific mass indistinguishable from other more common epithelial tumors. This case report describes a bilateral parotid glands mass as a first symptom of non-Hodgkin's lymphoma. The final diagnosis was established after an excisional biopsy and immunohistochemical staining. The patient underwent surgical excision and chemotherapy.

KEY WORDS : Lymphoma, non-Hodgkin · Parotid gland.

서 론

림프종은 림프절과 림프조직에서 발생하는 악성 종양으로 크게 호지킨스 림프종(Hodgkin's lymphoma)과 비호지킨스 림프종(non-Hodgkin's lymphoma)으로 분류된다¹⁻²⁾. 대부분의 림프종은 림프절내에 존재하지만, 비호지킨 림프종의 약 25~30%와 호지킨 림프종의 약 1%는 림프절 외의 장소에서 발생할 수 있다¹⁻²⁾. 두경부 영역은 위장관계 다음으로 림프절 외 림프종이 호발하는 장소로, Waldeyer's ring에 50% 이상이 발생한다. 특히 이하선에 림프종이 일차적으로 발생하는 경우는 매우 드문 경우로서, 전체 이하선 종양의 약 0.6~5%를 차지한다¹⁻³⁾. 저자들은 최근에 59세의 여자 환자에서 양측 이하선에 일차적으로 발생한 비호지킨스 림프종 1예를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

59세 여자환자가 1개월 간의 양측 이하선 부위에 크기 증

가하는 양상의 종물을 주소로 내원하였다. 이학적 검사상 좌측 종물은 약 3×3cm 크기였으며, 우측은 약 1×1cm 크기로 통증을 동반하였으며, 단단하고 주위 조직에 고정되지 않았다. 경부에서 비정상적인 림프절은 촉진되지 않았고, 안면신경의 운동 상태는 정상이었다. 또한 체중감소, 발열 및 야간발한과 같은 B symptom은 없었다. 전산화단층촬영상 좌측 이하선 부위에 2.7×2.2×2.0cm 크기의 고형성 종괴가 관찰되었으며, 우측으로는 이하선 후방에 약 1.6×1.2×0.7cm의 종괴가 관찰되었다(Fig. 1). 세침흡인 세포검사상 좌측으로는 다형 림프구(polymorphic lymphocyte)들이, 우측으로는 선방세포(acinic cell)들이 관찰되었다.

환자는 양측성 이하선 종괴 진단 하에 양측 이하선 천엽 절제술을 계획하고 수술을 시행하였다. 좌측 이하선 천엽 절제술을 먼저 시행하였으며 수술 소견상 종물은 갈색의 표면을 갖고 이하선의 천엽과 심엽에 걸쳐서 존재하였다. 주위 조직과 유착이 심하지는 않았으나 종괴가 안면신경의 가지를 둘러싸는 양상으로 더 이상의 박리가 불가능하였다. 좌측 이하선 천엽을 종괴와 함께 절제한 이후 동원절편 조직검사를 시행하였으며, 결과상 악성 림프종으로 진단되어 수술을 중단하였다. 술후 안면신경 마비 등의 특별한 합병증은 관찰되지 않았으며 술후 5병일에 외래에서 국소 마취하에 우측 이하선의 절제 생검 시행하였고 최종 조직병리검사 결과에

교신저자 : 선동일, 137-040 서울 서초구 반포동 505번지
가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실
전화 : (02) 590-2765 · 전송 : (02) 595-1354
E-mail : hnsdi@catholic.ac.kr

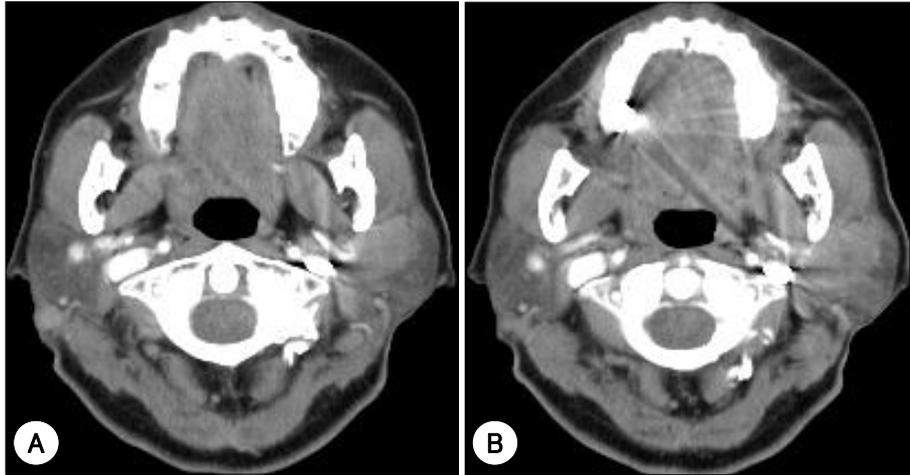


Fig. 1. Neck CT scan shows 2.7×2.2×2.0cm sized well defined homogeneous density mass in the left parotid gland(A) and 1.6×1.2×0.7cm sized small enhancing nodule in the posterior aspect of right parotid gland(B).

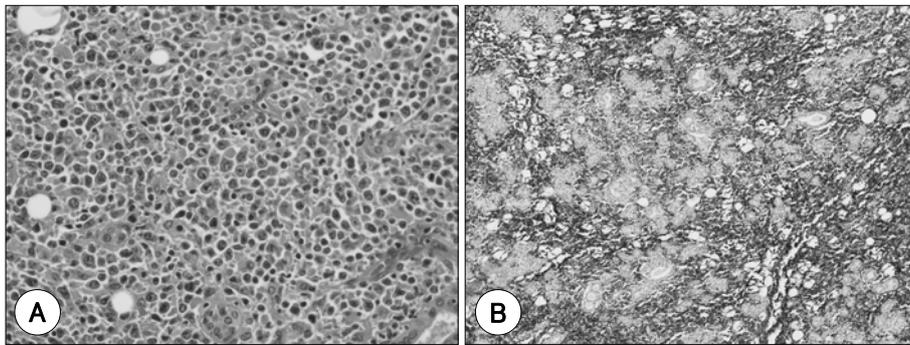


Fig. 2. Histologic finding shows diffuse large B-cell lymphoma. A : Tumor cells have large nuclei, open chromatin, and prominent nucleoli(H & E stain, ×200). B : Immunohistochemical staining discloses CD20-positive in brownish stains(×100).

서 좌우 양측 모두 비호지킨스 림프종인 diffuse large B cell lymphoma로 진단되었다(Fig. 2).

술후 시행한 salivary scan 과 Schirmer's test 상 특이한 소견 없었으며, ANA를 포함한 자가항체 검사상 음성 소견 보여 환자가 기저 질환으로 Sjögren syndrome 가지고 있지 않음을 감별할 수 있었다. 또한 EBV IgG, EBV IgM, heterophil antibody와 EBV RT-PCR 말초 혈액검사 상 음성 소견 나와 EBV(Epstein-Barr virus) 감염과의 관련성이 낮음을 확인하였다.

환자는 중앙내과로 전과되어 흉부, 복부 및 골반에 대한 전산화 단층촬영과 골수검사를 시행하였지만 림프종이 침범된 소견을 관찰할 수 없어 병기는 StageIIE로 진단되었고, 6cycle의 Rituximab와 CHOP(cyclophosphamide, adriamycin, vincristine, and prednisone) 항암치료를 받았으며 완전관해 판정 후 현재 1년이 경과하였으나 특별한 합병증이나 재발의 증거는 관찰되고 있지 않다.

고 찰

타액선 악성 림프종은 발생 위치상 림프절 외 장소로 분류

되며, 이하선 실질 또는 이하선 림프절에서 발생할 수 있다. 또한 이하선 림프종은 일차성 또는 이차성으로 분류될 수 있다¹⁾⁴⁾. 일차성 이하선 림프종에 대해 Barnes 등은 이하선 림프종이 첫번째 임상증상이면서 이하선 실질 또는 이하선 림프절에서 발생한 경우로 정의하였고⁴⁾, Gleeson 등은 이하선 림프종이 첫 임상증상으로 이하선 실질 내에서만 발생한 경우로 한정하였으며⁵⁾, Cesare 등은 림프종이 이하선 실질 또는 이하선 림프절에서 발생하여 이하선 실질을 침범한 경우로 정의하였다⁶⁾. 본 증례의 경우 Barnes 등이 제안한 기준을 적용하여 일차성 이하선 림프종으로 진단하였다.

림프종 발생의 위험 요인으로는 면역결핍증, 방사선 피폭, 면역억제, Sjögren 증후군, 류마티스 관절염, celiac disease, 하시모토 갑상선염 등이 알려져 있다¹⁾.

이하선의 림프종은 대부분 무증상의 종물을 주소로 내원하는 경우가 많아서 세침흡입검사가 유용하게 사용될 수 있다¹⁾⁴⁾. 그러나 세침흡입검사의 경우 검체의 양이 적으며, 정확한 종물의 위치에서 흡입하지 못할 경우 위음성으로 진단될 가능성이 크므로 림프종의 통상적인 진단방법으로 사용하기에는 어려움이 있다.

진단이 되지 않은 이하선 종양의 경우 대부분 이하선 천엽

절제술이 시행되지만, 림프종의 경우 수술에 있어 두 가지 선택이 있다. 첫째는 병변을 포함한 완전한 절제를 하는 것과 둘째는 수술 중 림프종으로 진단이 되면 병변의 부분적인 절제술 또는 절제 생검만을 해도 된다는 의견이 있다¹⁾⁴⁾.

천엽절제를 시행하는 이론적 근거는 이하선 림프종은 주변에 왕성한 림프양형구(lymphoid element)와 연관되는 경우가 많으며, Reed-Stenberg 세포의 유무 여부가 진단에 중요하므로 충분한 양의 조직 생검이 시행되지 않을 경우 정확한 어려움이 생길 수 있다는 것이다⁴⁾.

본 증례의 경우 환자는 면역결핍증, 면역억제의 병력 없었으며 방사선에 피폭된 과거력 없었다. Sjögren syndrome 감별 위하여 검사 시행하였으나 특이소견 없었으며, EBV와 관련성도 보이지 않았다.

술전 세침흡입검사 시행하였으나 최종 조직검사 결과와는 다르게 나왔는데, 이는 생검 조직량의 부족 혹은 부정확한 위치에서 시행된 세침 흡입 등이 그 이유로 추정될 수 있다. 이는 이하선 림프종 진단에 있어 세침흡입검사가 유용하게 사용될 수는 있으나, 통상적인 진단방법으로 이용되는 경우 한계점을 보여준다고 할 수 있다.

본 증례의 경우 환자는 좌측의 경우 이하선 천엽 절제술을 시행 받았으며, 우측으로는 절제생검 시행하였다. 수술 시 좌측 이하선 천엽 절제술 시행 이후 종괴가 심엽까지 확대되어 있음을 확인하였으나, 종괴가 안면신경을 둘러싸는 양상으로 관찰되어 심엽 절제시 안면신경 손상 가능성 높으며, 수술 육안 소견 상 악성 종양이 의심되어 동결절편 조직검사를 시행하였으며, 결과상 악성 림프종으로 진단되어 심엽 절제는 시행하지 않고 수술을 마쳤다.

본 증례에서 환자는 IPI(International Prognostic Index) 기준에 따라 score 1에 해당되었다. IPI score의 기준은 1) Age greater than 60years 2) Stage of disease(Stage III or greater) 3) Poor performance status(general health) 4) More than one extranodal site 5) Presence of an elevated level of lactate dehydrogenase(LDH)로, 본 증례의 경우 환자의 LDH 수치가 427U/L로 높게 측정되어 한 개의 기준에 해당되었다. IPI score 1의 경우 overall 5-year survival은 약 73%로, 본 증례의 환자에 대해서도 좋은 예

후가 기대된다.

이하선의 림프종은 다른 부위의 림프종에 비해서 더 좋은 예후를 갖는다고 알려져 있다⁷⁾. 또한 이하선에 발생한 호지킨스 림프종과 비호지킨스 림프종의 5년 생존율은 각각 91%와 51~81%로, 호지킨스 림프종에서 더 좋은 예후를 보이고 있다. 호지킨스 림프종이 진단 당시 병변이 국소화되어 있어 더 좋은 예후를 보인다고 설명하고 있다.

이하선의 림프종은 매우 드문 질환이다. 진단적 검사로서 세침흡입검사는 매우 유용한 검사이나, 확정적인 검사로 쓰이기에는 한계점이 있다. 따라서 이하선의 천엽 절제 혹은 절제 생검을 통해 충분한 양의 조직을 얻은 후에 정확한 진단이 가능하다. 진단이 내려진 후에는 항암치료 혹은 방사선 치료가 시행하여야 한다.

저자들은 양측 이하선에 일차적으로 발생한 비호지킨스 림프종 1예를 경험하여 보고하는 바이다.

중심 단어 : 비호지킨스 림프종 · 이하선.

References

- 1) Yang YS, Lim HS, Lee JK, Hong KH: *Primary Hodgkin's Lymphoma of the Parotid Gland. Korean J otolaryngol. 2003;46:1084-1087*
- 2) Lee DH, Lee JK, Kim JS, Lim SC: *Mucosa-associated Lymphoid Tissue Lymphoma of Parotid Gland. Korean J otolaryngol. 2005; 48:1402-1405*
- 3) Choi G, Yoo DH, Park HJ, Choi JO: *Mucosa-Associated Lymphoid Tissue Lymphoma of the Parotid Gland Mimicking Warthin's tumor. Korean J otolaryngol. 1998;41:1091-1093*
- 4) Barnes L, Myers EN, Prokopakis EP: *Primary Malignant Lymphoma of the Parotid Gland. Arch Otolaryngol Head Neck surg. 1998;124:573-577*
- 5) Gleeson MJ, Bennett MH, Cawson RA: *Lymphoma of salivary glands. Cancer. 1986;58:699-704*
- 6) De Cesare A, Bononi M, Atella F, Anglini M, Lauretti C: *Primary non-Hodgkin's lymphoma of the parotid gland. Panminerva Med. 1997;39:228-232*
- 7) Batsakis JG. *Primary lymphomas of the major salivary glands. Ann Otol Rhinol Laryngol. 1986;95:107-108*