

이하선에 발생한 양측성 Warthin 종양의 증례

원광대학교 치과대학 구강악안면방사선학교실
이 완 · 이병도

Bilateral Warthin tumor of the parotid gland: A case report

Wan Lee, Byung-Do Lee

Department of Oral & Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Wonkwang University

ABSTRACT

The Warthin tumor is a benign neoplasm that occurs mostly in the parotid gland. The tumor frequently occurs in the tail of the parotid gland. A 75-year-old man was referred to Wonkwang dental hospital with a chief complaint of swelling on the right submandibular area. Numerous salivary stones were observed in the right submandibular gland on computed tomography (CT). And the two tumorous lesions were incidentally found in the parotid gland bilaterally. The tumorous lesions showed homogeneous enhancement on the CT and intermediate signal intensity on both T1- and T2-weighted magnetic resonance (MR) images. This tumorous lesions also showed contrast enhancement on fat suppressed T1 weighted MR images. We report common CT and MR features of this case of Warthin tumor in the parotid gland with literature review. (*Korean J Oral Maxillofac Radiol* 2008; 38 : 57-62)

KEY WORDS : Warthin Tumor; Parotid Gland; Magnetic Resonance Imaging

Warthin 종양은 다형성 선종(pleomorphic adenoma)에 이어서 두 번째로 발생빈도가 높은 이하선 양성종양이며 이하선 종양의 약 2-15%를 차지한다.¹ 남자에서 월등히 발생빈도가 높으며(4:6:1), 40-60대의 중년층에서의 빈도가 높다고 알려져 있다. 또한 양측성으로 발생하는 경향이 있으며 여러 개의 병소가 동시에 관찰되는 다발성의 병소도 종종 관찰된다.^{2,3}

Warthin 종양은 전산화단층영상(computed tomography: CT)에서 난원형의 경계가 명확하고, 정도 혹은 중등도의 조영증강을 보이는 종괴 소견을 보이며,⁴ 자기공명영상(magnetic resonance imaging: MRI)에서는 T1 강조영상에서 중등도의 신호강도를, T2 강조영상에서 중등도 또는 높은 신호강도를 보인다.⁵⁻⁷ 전산화단층영상과 자기공명영상은 절단면의 영상을 얻을 수 있고 병소 내부 구조물에 대한 정보를 상세히 제공하기 때문에 이하선의 병소진단에 유용하다.⁵

본 증례에서는 이하선에서 양측성으로 발생한 Warthin

종양의 전산화단층영상과 자기공명영상의 특징적인 소견들을 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례 보고

75세 남자환자가 동통을 수반한 우측 악하선의 종창을 주소로 원광대학교 치과병원에 내원하였다. 한달 전부터 종창이 시작되었으며 구강저 악하선 개구부에서 배농이 되고 있었다. 과거력으로는 20대 초반에 시작한 15년의 흡연력이 있었으며 천식 이외의 별다른 전신병력은 없었다.

파노라마방사선사진에서 우측 악하선 부위에 동심원 층상구조를 보이는 커다란 타석과 다수의 작은 타석이 관찰되었으며(Fig. 1) 추가적으로 전산화단층영상촬영을 하였다. 전산화단층영상에서 우측 악하선의 타석들과 타액선염의 소견도 관찰되었다(Fig. 2A).

경부의 반응성 림프절병증 소견도 관찰되었는데 이는 타액선염의 영향이라고 생각하였다.

좌측 귓볼(ear lobe) 전방 이하선 표재엽 부위와 우측 이하선 표재엽 부위에서 난원형의 주위조직과 경계가 명료하고, 이하선 실질보다는 방사선 불투과성이 증가되어 보이며 균일한 조영증강을 보이는 연조직 병소들이 각각 관

접수일 : 2008년 1월 7일; 심사일 : 2008년 1월 8일; 채택일 : 2008년 2월 15일
Correspondence to : Prof. Byung-Do Lee
Department of Oral and Maxillofacial Radiology, College of Dentistry, Wonkwang University, 344-2, Shinyong dong, Iksan city, Chunbuk 570-711, Korea
Tel) 82-63-859-2912 Fax) 82-63-857-4002 E-mail) cebydo@wonkwang.ac.kr

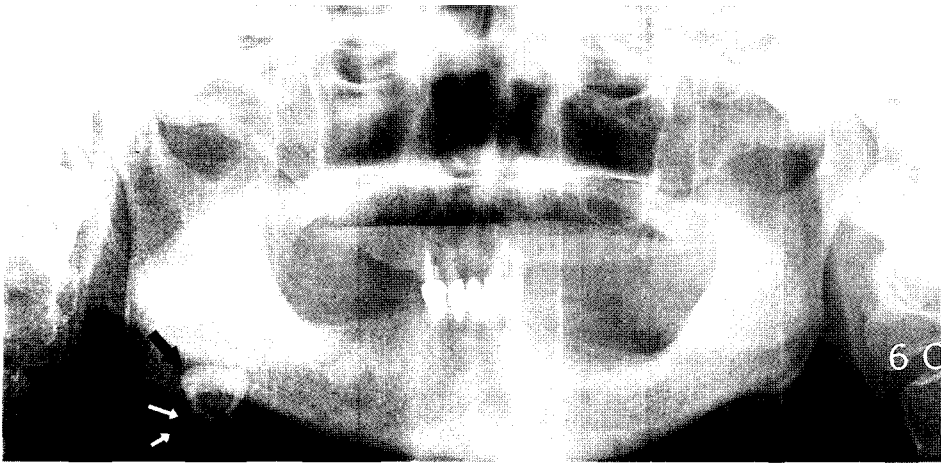


Fig. 1. Panoramic view shows a large salivary stone (black arrow) and several small salivary stones (white arrow) in the right submandibular gland.

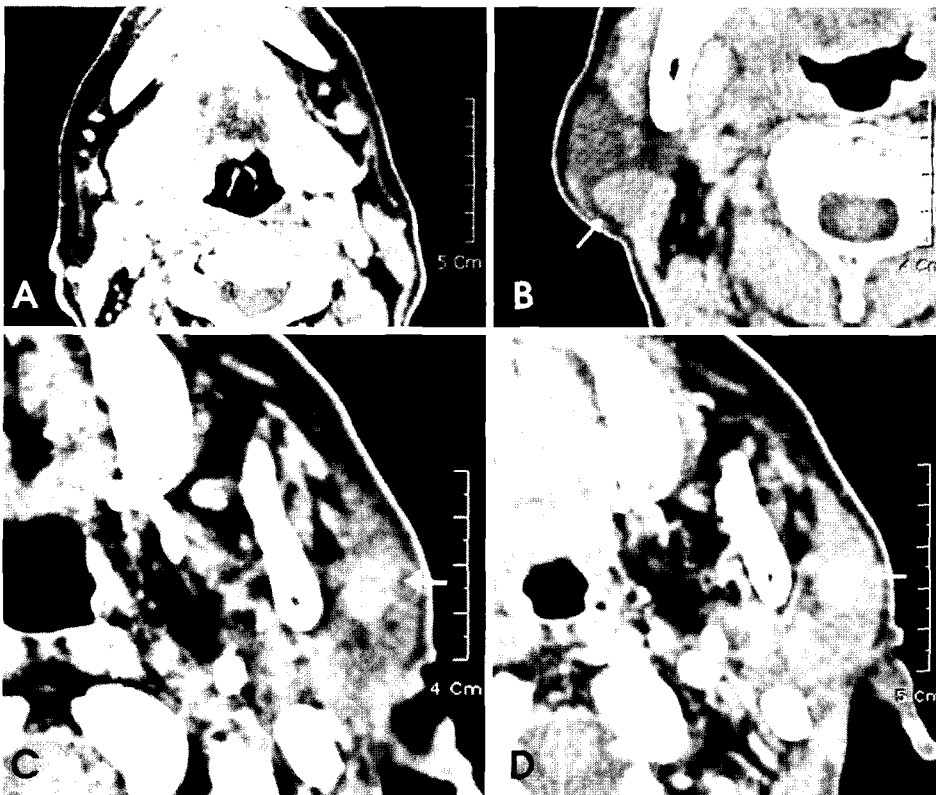


Fig. 2. Computed Tomography of parotid gland. A. Multiple small stones and sialoadenitis are observed in the right submandibular gland. B, C. Axial CT scans show the tumorous lesions in the superficial lobes of right and left parotid gland. These tumorous lesions show an oval shape, and a well-defined margin. D. This image demonstrates homogeneously contrast enhancing mass in the superficial lobe of left parotid gland.

찰되었다(Fig. 2B-D). 양측 이하선 부위를 촉진 시 둥글고 비교적 단단한 종물이 감지되었으며 우측 병소는 촉진 시 동통을 호소하여 림프절병증을 의심 하였으나 종양 가능성도 배제하지 않았다.

이러한 임상, 방사선학적 소견을 종합하여 판단시 다형성 선종과 Warthin 종양과 같은 양성병소와 점액표피양암종(mucoepidermoid carcinoma)과 선양낭성암종(adenoid cystic carcinoma)등의 악성 종양을 의심하였으나 병소 경계가 명확하여 악성보다 양성병소로 생각하였다. 종양의 내부구조를 보다 정확하게 파악하기 위해 자기공명영상촬영

영을 추가로 촬영하였다.

자기공명영상에서는 T1과 T2 강조영상에서 중등도 신호강도를 보이고 근육보다 높은 신호강도를 보였다(Fig. 3). 이러한 소견은 이하선 상피성 양성 종양의 특징적인 소견들이며 악성 질환과의 감별을 용이하게 하였으나 다형성 선종과 Warthin 종양간의 감별이 쉽지 않았다.

좌, 우측 이하선은 Gadolinium 조영 강조 영상에서 균일한 조영증강을 보였으며(Fig. 4A, C), 조영 증강 5분 후 영상에서는(Fig. 4B, D) 좌측과 우측 병소가 비슷한 속도로 조영제가 배출되어 조영증강이 감소되는 소견을 보였다.

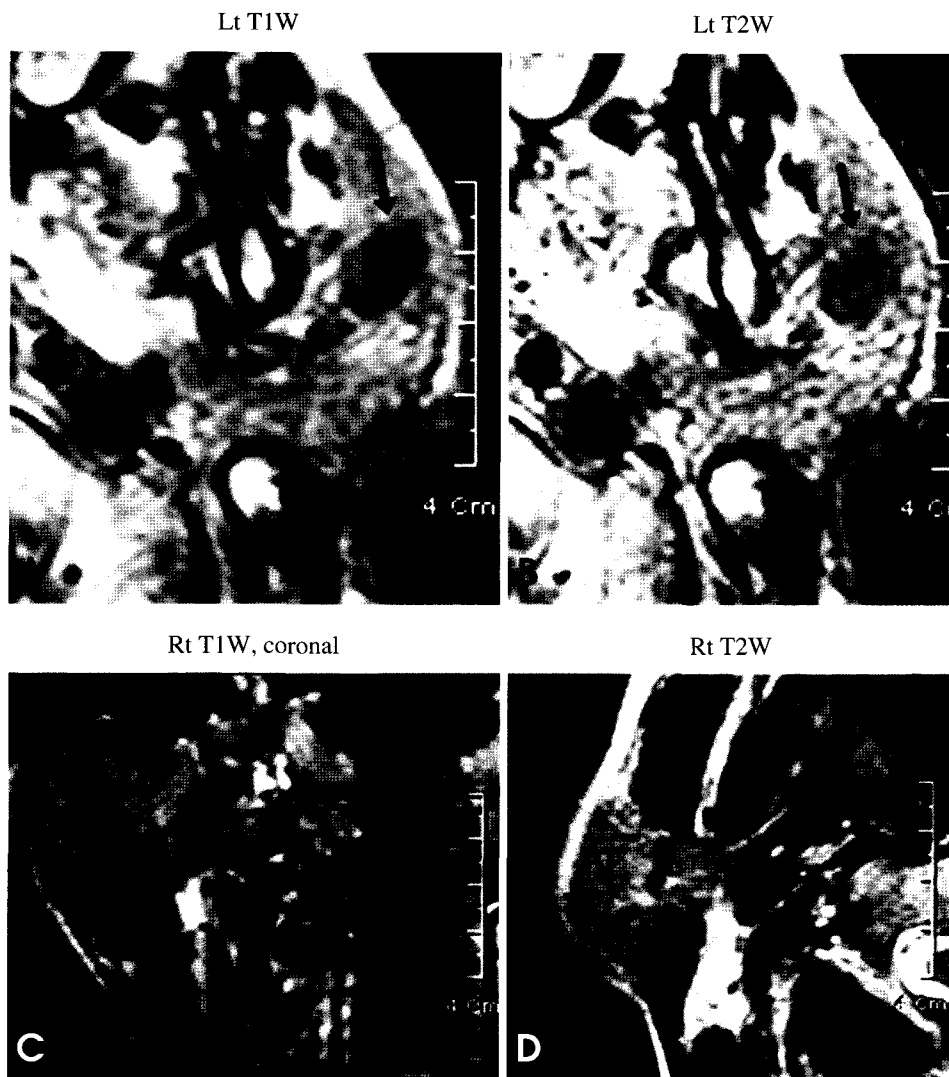


Fig. 3. MR images of right and left parotid gland. The signal intensity of the tumorous lesions show intermediate signal intensity on both T1- and T2-weighted images (A-D). These lesions show the higher signal than that of surrounding muscle (B). The right lesion is located in the inferior portion of the superficial lobe and anterolateral to the sternocleidomastoid muscle and doesn't infiltrate the muscle (C, D). A thin hypointense peripheral line is seen around tumorous lesion (A, C). A. T1 weighted axial view of the left parotid gland; B. T2 weighted axial view of the left parotid gland; C. T1 weighted coronal view of the right parotid gland; D. T2 weighted axial view of the right parotid gland.

양측성으로 발생된 점, 비교적 빠른 조영제 배출의 wash-out 상 등의 특징적인 소견들이 다형성 선종보다는 Warthin 종양을 의심하게 하였다.

전신마취 하에 우측 악하선은 타석과 함께 완전 적출술을 시행하였으며 좌측 이하선의 연조직 병소는 국소적 외과적 적출술을 시행하였다. 생검결과 우측 악하선의 타석과 타액선염을 확인하였고 좌측 연조직 병소는 임파선 조직의 현저한 증가를 볼 수 있었으며 이 속에 배중심이 나타났다. 임파조직의 표면은 두 층의 상피세포로 덮여 있었고 내층에 호산성 물질이 보여 Warthin 종양으로 확진하였다(Fig. 5).

고 찰

Warthin 종양은 adenolymphoma, papillary cystadenoma lymphomatosum 등으로 불리운다. Papillary cystadenoma lymphomatosum은 특징적인 조직학적인 모양에 근거를 둔

명칭으로서 대부분의 병리학자들로부터 널리 인정받고 있다.⁸ Papillary cystadenoma는 종양이 낭성 구조를 이루며 두 층의 상피가 낭 내로 유두상 돌기를 갖는다는 의미이고, lymphomatosum은 종양을 지지하는 주변의 림프 조직에 대한 설명이다. 이후 Warthin에⁹ 의하여 본 종양의 특징이 자세하게 기술됨으로써 Warthin 종양이라는 용어가 일반적으로 사용되고 있다.

병인으로는 여러 가지 가설이 있지만 이하선 내부 또는 인접부위의 림프절 내에 존재하는 이소성 타액선조직이 기원이 된다는 주장이 설득력 있게 받아들여지고 있으며¹⁰ 초기에 피막이 형성되는 악하선이나 설하선에서는 Warthin 종양이 매우 드물게 보고되고 있다.^{11,12}

Warthin 종양의 세포 구성이 종양 발달 초기에는 림프성분이 주를 이루고, 중간에 상피세포가 성장하여 림프성분과 상피성분 간의 비율이 비슷하다가 병소 말기에는 상피성분이 주가 되는 단계를 거친다고 알려져 있으며,¹³ 이러한 과정의 유발 인자로는 흡연,^{13,14} 자가면역¹⁵ 등을 들 수

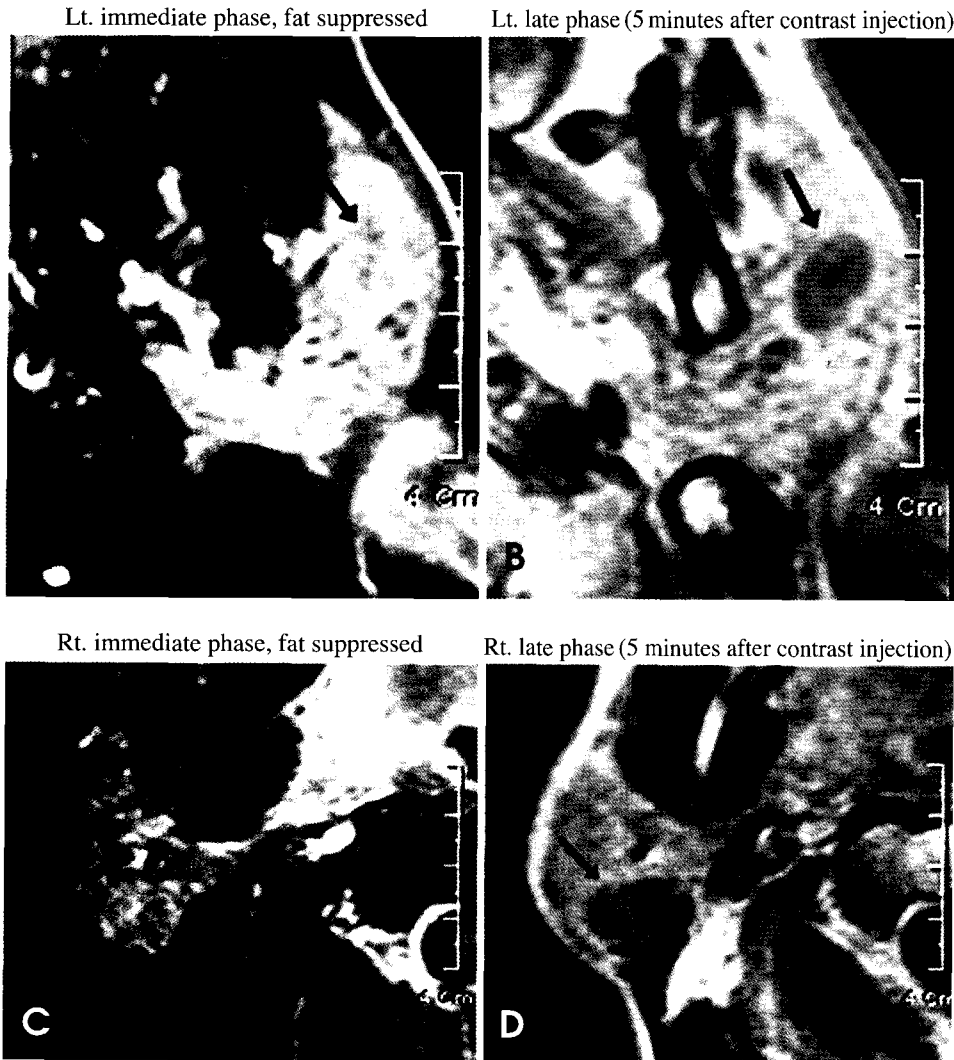


Fig. 4. Gadolinium enhanced, fat suppressed T1 weighted axial MR images of parotid gland. The tumorous lesions were enhanced highly (A, C) and showed less enhancement on the postcontrast images (5 minutes after contrast injection) (B, D). Left and right lesions showed the similar contrast enhancement pattern.

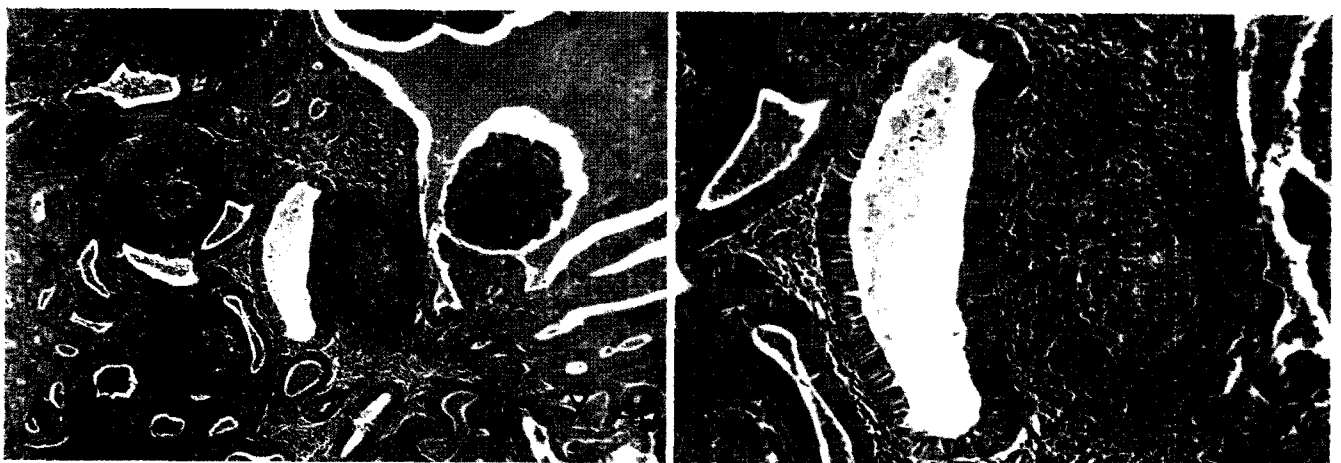


Fig. 5. Light microscopic finding. The tumor is composed of a mixture of ductal epithelium and a lymphoid stroma. The prominent lymphoid tissue with a germinal center is seen. The overlying surface of lymphoid tissue is covered with a double layer of epithelial cells. Haematoxylin and eosin stain (A: $\times 40$, B: $\times 100$ magnification).

있고 특히 다발 또는 양측성으로 발생된 경우 Epstein-Barr virus가¹⁶ 원인 요소로 거론되고 있다.

남성에서 호발되나 여성에서의 빈도가 증가된다고 보고되고 있다.^{17,18} 여성에서의 발생 빈도가 증가하는 원인 중 하나로 흡연을 들 수 있는데, Warthin 종양 환자의 약 90%에서 흡연력이 있다는 것이 보고되었고^{17,18} Kotwall은¹⁹ 흡연을 하는 군에서 Warthin 종양의 발병 위험성이 8배 정도 높다고 보고한 바 있다. 본 증례의 환자도 약 15년 정도의 흡연력이 있었다.

최근에 이하선의 종양 진단시 전산화단층영상과 자기공명영상 이용이 증가되고 있으며 각각의 장단점에 대한 연구들이 보고되고 있다.⁵⁻⁷ 이하선 종양에 대한 전산화단층영상과 자기공명영상의 비교연구에서 염증성 병소 또는 석회화 관찰의 경우 전산화단층영상이 자기공명영상보다 우수하다고 보고되고 있으나²⁰ 종양의 내부 형태와 성분 등을 평가하는 데는 자기공명영상이 더 우수하다.²¹⁻²³ 자기공명영상 T1 강조영상은 해부학적 위치 정보를 제공하는 반면 T2 강조영상은 병소의 경계와 내부구조물에 대한 정보를 제공하는데 유리하다.²⁰

악성도가 높은 악성종양의 경우 전산화단층영상과 자기공명영상에서 경계가 불명확하면서 주위 정상조직으로 침윤의 소견이 관찰되는 반면 양성종양의 경우에는 잘 경계가 지워진 변연을 보이는 것이 일반적이다.²⁴ 본 증례의 경우 전산화단층영상에서 평활한 경계를 가진 원형의 병소로 관찰되어 양성병소를 의심하였고 발생빈도가 높은 다형성 선종, Warthin 종양을 의심하였다. 양측성으로 관찰되는 타액선 종양의 약 80%는 Warthin 종양이며 6%는 다형성 선종, 그 뒤를 이어 oncocytoma, acinic cell carcinoma 등으로 보고되고 있다.^{25,26} 이러한 선학들의 연구 결과를 토대로 본 증례의 경우 다형성 선종보다는 Warthin 종양을 강하게 의심하였다.

다형성 선종과 Warthin 종양은 각각 특징적인 병소 특징을 가지기 때문에 다양한 영상학적 소견을 보인다.

다형성 선종은 자기공명영상에서 균일 또는 비균일하고 T1 강조영상에서 중등도 신호강도를 보이며 T2 강조영상에서는 중등도 또는 높은 신호강도를 보이는 경향이 있다.^{27,28} 뇌척수액보다 높은 신호강도로 보일 수 있는데 낭이나 점액성 조직의 영향 때문이다.²⁸ Gadolinium 조영제에 의해서 균일한 증강영상을 보이나, 낭 부분은 조영제 증강이 안되기 때문에 불균일하게 보일 수도 있으며, 비정상조직 석회화(dystrophic calcification) 소견은 드물지만 다형성 선종을 의심할 수 있는 중요 소견이라고 볼 수 있다.²⁷

Warthin 종양은 자기공명영상에서 대체적으로 균일하게 보이며 T1 강조영상에서 중등도 신호강도를, T2 강조 영상에서는 국소적으로 높은 신호강도를 보이면서 중등도 신호강도를 갖는 종양으로 보고되었다.^{29,30} Warthin 종양 성분 중에서 Ikeda 등은³⁰ 포말세포(foam cell), 적혈구, 그리고

중성구로 채워진 작은 낭 부위가, Minami 등⁷은 콜레스테롤 결정이 T1 강조 영상에서 높은 신호강도를 나타내는 부위라고 하였다. 상피 조직과 림프조직의 증식으로 구성되어 있는 고형성분으로 인해 조영제 증강이 되지 않는 점이 특징적인 소견으로 보고되기도 하였으며⁷ 조영증강 후 높은 신호강도를 보인 증례도 보고된 바 있다.⁶

일반적인 자기공명영상기법으로 이하선에 발생한 양성 종양을 감별하려는 시도가 있었으나 특징적이지 않았다.^{22,27} 따라서 중 T2 강조 영상(heavily T2 weighted image), 역동적 조영강조 자기공명영상(dynamic contrast enhanced MRI) 등을 이용하여 감별을 시도한 연구가 보고되고 있다.^{6,30-32}

본 증례에서의 자기공명영상 소견은 T1과 T2 강조영상 모두에서 중등도 신호강도를 보이고 있으나 근육보다는 높은 신호강도를 보였다. 이러한 소견들은 다형성 선종과 Warthin 종양 모두에서 보일 수 있는 특징들이어서 두 질환을 감별하기 어려웠다. Gadolinium 조영 강조 영상을 관찰한 결과, 조영제 주입 후 좌·우측 병소 부위가 유사한 조영증강 영상을 보였으며 조영증강 5분 후 영상에서도 좌측과 우측 병소가 비슷한 속도로 조영제가 소실된 양상을 보였다. 이러한 소견은 좌측과 우측의 병소가 동일한 병소라는 것을 암시한다고 판단하였으며 특징적인 조영증강상 등³²이 다형성 선종보다는 Warthin 종양을 의심하게 하였다.

Warthin 종양은 많은 미세혈관 분포와 많은 세포성분을 포함하고 있어³³ 초기 빠른 조영 증강과 후반기 빠른 조영 감소가 여타의 이하선 종양과 구별되는 특징적인 소견이나,⁶ 종양 내부의 낭성 변화와 세포성분이 적은 경우에는 느린 washout 소견을 보이기도 한다.³³

Maiorano 등¹은 병소 절제한 표본을 좀더 정확히 확장하여 시편을 만들어 검사한 결과 기존의 보고보다 다발성이 좀더 자주 일어남을 확인하였으며, 양측성 또는 다발성의 빈도수가 낮게 평가된 이유로, 반대측에 발생한 두 번째 Warthin 종양은 독립적으로 발생한 것으로 해석하고, 동측 타액선에 발생한 두 번째 Warthin 종양은 재발로 생각하기 때문이라고 하였다. 또 다른 이유로는, 임상적으로 발견한 종양은 단순 적출술이나 국소적 절제술로 제거되지만 아주 작은 종양은 남게 된다. 임상적으로 발견될 정도로 성장하게 되면 재발이나 독립적인 종양으로 해석한다는 점이다.³⁴ 더욱이 Warthin 종양의 전형적인 조직학적 소견을 보이지 않으면 림프포피낭(lymphoepithelial cyst), autoimmune myoepithelial sialoadenitis, 양측성 재발성 이하선염 등으로 진단되기도 한다.

본 증례는 75세의 고령 환자의 이하선에서 양측성으로 발생한 Warthin 종양의 전산화단층영상과 자기공명영상 소견이 일반적인 소견을 보여 주었고, 우측 악하선 부위의 다발성 타석과 타액선염을 동반한 흥미로운 증례로서 문

현고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Maiorano E, Lo Muzio L, Favia G, Piattelli A. Warthin's tumour: a study of 78 cases with emphasis on bilaterality, multifocality and association with other malignancies. *Oral Oncol* 2002; 38 : 35-40.
2. Kwon KH, Suh JH, Hur MH, Chung WY, Kang HY, Park CS. Enucleation for the management of the parotid Warthin's tumor. *J Korean Surg Soc* 2001; 61 : 474-8.
3. Choi JO. Selection of surgical treatment for Warthin's tumors of parotid : Experience in 20 cases. *Korean J Otolaryngol* 1999; 42 : 501-4.
4. Ikarashi F, Nakano Y, Nonomura N, Kawana M. Radiological findings of adenolymphoma (Warthin's tumor). *Auris Nasus Larynx* 1997; 24 : 405-9.
5. Howlett DC, Kesse KW, Hughes DV, Sallomi DF. The role of imaging in the evaluation of parotid disease. *Clin Radiol* 2002; 57 : 692-701.
6. Hisatomi M, Asaumi J, Konouchi H, Yanagi Y, Matsuzaki H, Kishi K. Assessment of dynamic MRI of Warthin's tumors arising as multiple lesions in the parotid glands. *Oral Oncol* 2002; 38 : 369-72.
7. Minami M, Tanioka H, Oyama K, Itai Y, Eguchi M, Yoshikawa K, et al. Warthin tumor of the parotid gland: MR-pathologic correlation. *AJNR Am J Neuroradiol* 1993; 14 : 209-14.
8. Chaudhry AP, Gorlin RJ. Papillary cystadenoma lymphomatosum (adenolymphoma); a review of the literature. *Am J Surg* 1958; 95 : 923-31.
9. Warthin AS. Papillary cystadenoma lymphomatosum: a rare teratoid of the parotid region. *J Cancer Res* 1929; 14 : 116-25.
10. Albrecht H, Arzt L. Beitrage zur Frage der Gewebsverirrung. Papillare cystadenome in lymphdrusen. *Frankfurt Etschr f Pathol* 1910; 4 : 47-69.
11. Fantozzi RD, Bone RC, Fox R. Extraglandular Warthin's tumors. *Laryngoscope* 1985; 95 : 682-8.
12. Kukreja HK, Jain HK. Adenolymphoma of submandibular salivary gland. *J Laryngol Otol* 1971; 85 : 1201-3.
13. Aguirre JM, Echebarria MA, Martinez-Conde R, Rodriguez C, Burgos JJ, Rivera JM. Warthin tumor. A new hypothesis concerning its development. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1998; 85 : 60-3.
14. Chung YF, Khoo ML, Heng MK, Hong GS, Soo KC. Epidemiology of Warthin's tumour of the parotid gland in an Asian population. *Br J Surg* 1999; 86 : 661-4.
15. Gallo O, Bocciolini C. Warthin's tumour associated with autoimmune diseases and tobacco use. *Acta Otolaryngol* 1997; 117 : 623-7.
16. Santucci M, Gallo O, Calzolari A, Bondi R. Detection of Epstein-Barr viral genome in tumor cells of Warthin's tumor of parotid gland. *Am J Clin Pathol* 1993; 100 : 662-5.
17. Lamelas J, Terry JH Jr, Alfonso AE. Warthin's tumor: multicentricity and increasing incidence in women. *Am J Surg* 1987; 154 : 347-51.
18. Monk JS Jr, Church JS. Warthin's tumor. A high incidence and no sex predominance in central Pennsylvania. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1992; 118 : 477-8.
19. Kotwall CA. Smoking as an etiologic factor in the development of Warthin's tumor of the parotid gland. *Am J Surg* 1992; 164 : 646-7.
20. Casselman JW, Mancuso AA. Major salivary gland masses: comparison of MR imaging and CT. *Radiology* 1987; 165 : 183-9.
21. Mandelblatt SM, Braun IF, Davis PC, Fry SM, Jacobs LH, Hoffman JC Jr. Parotid masses: MR imaging. *Radiology* 1987; 163 : 411-4.
22. Teresi LM, Lufkin RB, Wortham DG, Abemayor E, Hanafee WN. Parotid masses: MR imaging. *Radiology* 1987; 163 : 405-9.
23. Schaefer SD, Maravilla KR, Close LG, Burns DK, Merkel MA, Suss RA. Evaluation of NMR versus CT for parotid masses: a preliminary report. *Laryngoscope* 1985; 95 : 945-50.
24. Hamilton BE, Salzman KL, Wiggins RH 3rd, Harnsberger HR. Ear-ring lesions of the parotid tail. *AJNR Am J Neuroradiol* 2003; 24 : 1757-64.
25. Seifert G, Donath K. Multiple tumours of the salivary glands--terminology and nomenclature. *Eur J Cancer B Oral Oncol* 1996; 32B : 3-7.
26. Yu GY, Ma DQ, Zhang Y, Peng X, Cai ZG, Gao Y, et al. Multiple primary tumours of the parotid gland. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2004; 33 : 531-4.
27. Joe VQ, Westesson PL. Tumors of the parotid gland: MR imaging characteristics of various histologic types. *AJR Am J Roentgenol* 1994; 163 : 433-8.
28. Tsushima Y, Matsumoto M, Endo K, Aihara T, Nakajima T. Characteristic bright signal of parotid pleomorphic adenomas on T2-weighted MR images with pathological correlation. *Clin Radiol* 1994; 49 : 485-9.
29. Soler R, Bargiela A, Requejo I, Rodriguez E, Rey JL, Sancristan F. Pictorial review: MR imaging of parotid tumours. *Clin Radiol* 1997; 52 : 269-75.
30. Ikeda M, Motoori K, Hanazawa T, Nagai Y, Yamamoto S, Ueda T, et al. Warthin tumor of the parotid gland: diagnostic value of MR imaging with histopathologic correlation. *AJNR Am J Neuroradiol* 2004; 25 : 1256-62.
31. Sakamoto M, Sasano T, Higano S, Takahashi S, Iikubo M, Kakehata S. Usefulness of heavily T(2) weighted magnetic resonance images for the differential diagnosis of parotid tumours. *Dentomaxillofac Radiol* 2003; 32 : 295-9.
32. Hisatomi M, Asaumi J, Yanagi Y, Unetsubo T, Maki Y, Murakami J, et al. Diagnostic value of dynamic contrast-enhanced MRI in the salivary gland tumors. *Oral Oncol* 2007; 43 : 940-7.
33. Yabuuchi H, Fukuya T, Tajima T, Hachitanda Y, Tomita K, Koga M. Salivary gland tumors: diagnostic value of gadolinium-enhanced dynamic MR imaging with histopathologic correlation. *Radiology* 2003; 226 : 345-54.
34. Vigliani R. Adenolymphoma and microadenolymphoma. Histomorphogenetic considerations. *Pathologica* 1990; 82 : 637-52.