

이하선에 발생한 다형선종유래암종의 치험례

정진환 · 이상철 · 김동우 · 박대송 · 이슬기 · 박철휘 · 엄학렬 · 김현민 · 송민석¹
가천의과대학교 길병원 구강악안면외과, ¹중앙대학교병원 구강악안면외과

Abstract (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2010;36:53-56)

Carcinoma ex pleomorphic adenoma of the parotid gland: Case report

Jin-Hwan Jung, Sang-Chil Lee, Dong-Woo Kim, Dae-Song Park, Seul-Ki Lee,
Chul-Hui Park, Hak-Ryul Yeom, Hyeon-Min Kim, Min-Seok Song¹

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Gil Hospital, Gachon University

¹Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Chung-Ang University Hospital

Carcinoma ex pleomorphic adenoma is transformed at the incidence of 1-20% in pleomorphic adenoma and frequently recurred. It accounts for 10% of all malignant salivary tumors and its average age of occurrence is 60s. It will present in a large, long-standing pleomorphic adenoma or in one that was previously treated but has recurred. According to cell composition in malignant cell carcinoma, and clear cell adenocarcinoma. Most (75%) occur in parotid gland, while about 20% occur in the minor gland of the oral mucosa. The metastasis rate to regional lymph node is about 25%, and to distant organs about 33% and the 5-year survival rates are 40%. Though the treatment of the carcinoma ex pleomorphic adenoma is not established, it is treated ideally with and extensive resection, neck dissection, postoperative radiotherapy, and chemotherapy. When occurred in parotid gland, facial paralysis is reported. With a review of literatures, we report a case of carcinoma ex pleomorphic adenoma which operated with total parotidectomy and supraomohyoid neck dissection.

Key words: Carcinoma ex pleomorphic adenoma, Supraomohyoid neck dissection

(원고접수일 2009. 11. 2 / 1차수정일 2009. 11. 26 / 2차수정일 2009. 12. 24 / 게재확정일 2010. 1. 4)

I. 서 론

다형선종유래암종(carcinoma ex pleomorphic adenoma)은 다형선종에서 1-20%의 발병률로 변환되고 빈번하게 재발된다고 보고되고 있다. 다형선종유래암종의 발병은 다형선종의 장기간 지속, 종양의 재발, 방사선 치료, 가령, 그리고 종양의 크기와 관련이 있다고 한다. 특히, 이 질환의 발병은 다형선종의 기간과 상호관련이 있으며, 악성으로 발달할 위험성은 5년 이하의 다형선종에서 오직 1.5%이고 15년 이상의 증례에서는 9.5%로 증가하였다고 한다¹. 그리고, 불완전한 절제가 이 질환의 재발과 관련이 있다고 한다^{2,3}. 비록 다형선종유래암종에 대한 치료가 확립되진 않았지만, 광범위절제, 경부청소술, 술 후 방사선 치료, 화학요법과 함께 양호하게 치료되고 있다고 알려져 있다.

이에 저자들은 34세 남자 환자와 81세 여자 환자의 이하

선에 발생한 다형선종유래암종을 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

II. 증례보고

1. 증례 1

34세 남자 환자가 우측 유양돌기 부위의 종물을 주소로 개인병원으로부터 2006년 3월 본원으로 의뢰되었다. 병력상 우측 유양돌기 주변의 종물이 5년 전부터 발생하였고 1년 전부터 크기가 증가하였다고 환자가 진술하였다. 초진시 이학적 검사상 우측 유양돌기 하방에서 4 cm 크기의 무통성 종물이 촉지되었고 경결감이나 파동성은 없었다. 비정상적인 경부 임파절은 촉지되지 않았고 연하 시 약간의 불편감을 호소하였다. 타액분비도 정상이었으며 안면신경 마비나 개구제한은 관찰되지 않았다. 환자의 과거력상 특이할 만한 병력이나 가족력은 없었다.

파노라마 방사선 사진에서는 비정상적인 소견이 없었고 전산화 단층 촬영 결과 교근과 하악골 상행지 후연에서 유양돌기 전방에 이르는 경계가 명확한 종물이 관찰되었고 이하선의 천엽에 국한된 양상이었다. 자기공명영상(T2 weighted image)에서 고강도 신호를 보이는 경계가 명확한

김 현 민

405-760, 인천시 남동구 구월동 1198

가천의과대학교 길병원 구강악안면외과

Hyeon-Min Kim

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Gil Hospital, Gachon University
1198, Guwol-dong Namdong-gu Incheon 405-760, Korea

Tel: +82-32-460-3373, 3372 Fax: +82-32-460-3101

E-mail: jumincw@hanmail.net

구형의 종물이 관찰되었다.(Fig. 1.)

2006년 4월 18일 이하선 중앙 가진 하에 전신마취 후 종물을 절제하였다.(Fig. 2. A.) 절제된 종물의 크기와 무게는 $4.3 \times 4.3 \times 2.0$ cm, 24.0 gm이었다.(Fig. 2. B.) 전체 종양 중 2 cm 크기의 암종 및 clear resection margin이 관찰되었다. 면역화학검사에서 p53에 대해 양성반응과 높은 Ki-67 index를 보여 다형선종유래암종으로 확진되었다.(Fig. 3.)

2006년 5월 2일 이하선 절제술 및 선택적 경부청소술

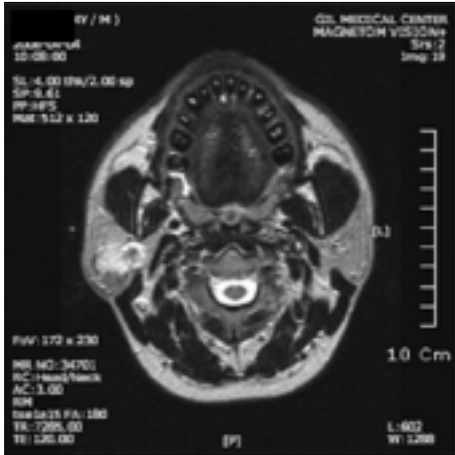


Fig. 1. About 4 cm sized lobulating well-defined mass with hyperintense on T2WI enhancement on right parotid.

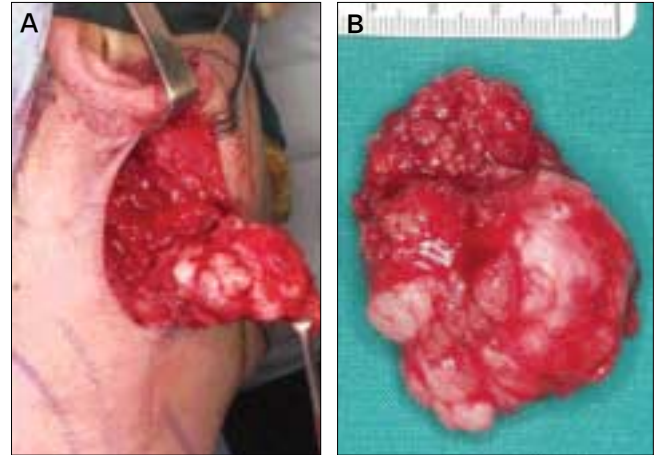


Fig. 2. Photographs showing the appearance of well capsulated mass.

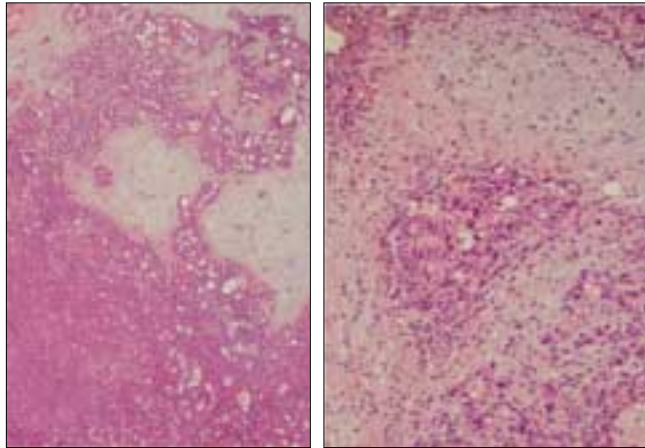


Fig. 3. Photographs showing confinement within tumor capsule, no lymphatic and vascular tumor emboli, and clear resection margin. By immunohistochemistry, the carcinoma component is positive for p53 and shows high Ki-67 index (up to 30%).

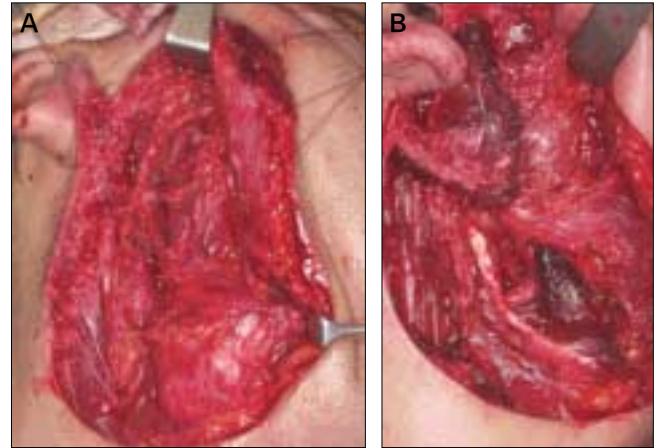


Fig. 4. Intraoperative photographs. A. Supraomohyoid neck dissection was performed and facial nerve was preserved. B. Facial nerve was covered with rotating sternocleidomastoid muscle flap.

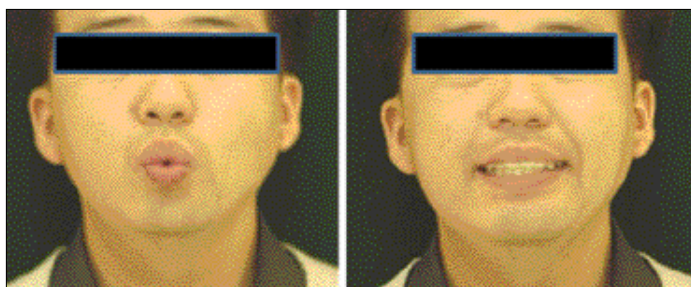


Fig. 5. There was non-specific problem of function and esthetics (post op 5 months).

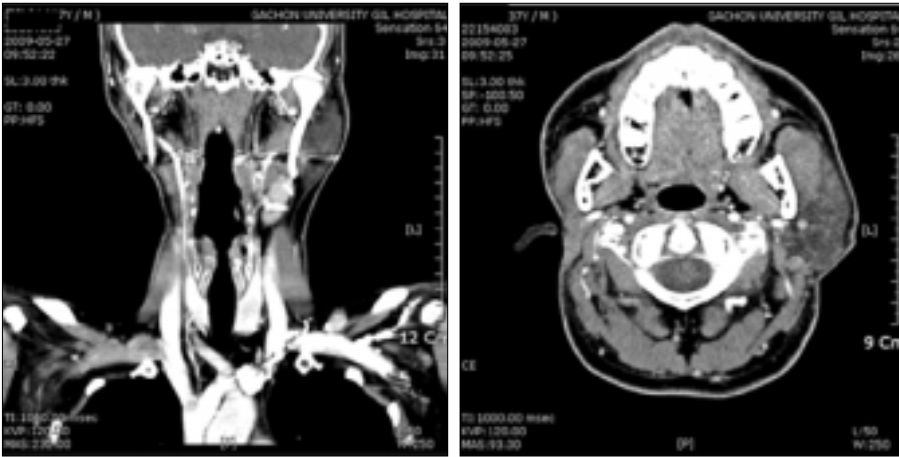


Fig. 6. No definite evidence of local recurrence and significant lymph node in bilateral neck (post op 36 months).

2. 증례 2

81세 여자 환자가 개인치과의원을 경유하여 좌측 이하부의 종물 제거를 위해 본과로 내원하였다.(Fig. 7.) 환자 진술상 약 12년 전부터 좌측 이하부 종물의 크기가 점점 증가하였다고 하였다. 이학적 검사상 좌측 전이개 부위에서 좌측 하악골 하연에 이르는 거대한 무통성 종물이 촉지되었고,

개구제한은 없었으며 타액분비도 정상이었으나 안면표정을 지을시 좌측 하순이 다소 긴장된 모습을 보였다. 세침흡인검사를 시행하였고 전산화 단층 촬영 결과 교근 및 하악골 상행지 후연과 유양돌기 사이의 이하선 천엽에서 heterogeneous attenuation을 보이는 경계가 명확한 종물이 관찰되었다.(Fig. 8.) 경부임파절은 관찰되지 않았다.

2008년 10월 14일 전신마취하에 다형선종 가진으로 종물



Fig. 7. Photograph showing extraoral appearance.



Fig. 8. 7x7 cm sized well defined mass with heterogeneous attenuation on left parotid.

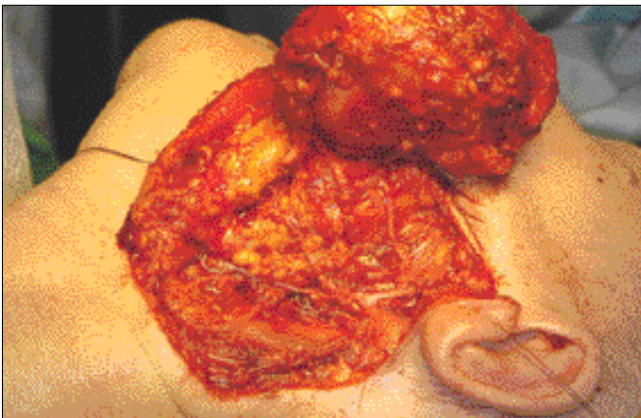


Fig. 9. photograph showing the removal of mass and facial nerve preservation.



Fig. 10. Postoperative photograph showing improved facial contour.

을 포함한 이하선 절제술을 시행하였다. 종물은 피막으로 잘 둘러싸여 있었고 이하선의 심엽 일부도 함께 절제하였으며 안면신경은 보존하였다.(Fig. 9.) 흉쇄유돌근 피관으로 안면신경을 피개하였으며 여분의 피부는 절제한 후 봉합하였다. 종물의 크기는 7.0 × 7.0 cm이었고 무게는 129.0 gm이었다. 표면은 회백색 및 적갈색을 띄었고 비교적 매끈하였으며 단면은 황갈색을 띄고 있었다. Capsular invasion, lymphatic and vascular invasion은 없었고 clear resection margin을 보였다. 임파절에서 종양은 관찰되지 않았다. 조직학적으로 high grade의 다형선종유래암종으로 확진되었다.

술 후 2개월간 방사선 치료를 시행하다가 환자의 개인적인 사정으로 중단하였다. 3개월마다 주기적으로 체크하고 있으나 재발 및 전이 소견은 관찰되지 않았다.(Fig. 10.)

Ⅲ. 고 찰

다형선종이 치료받지 않은채 오래될수록 다형선종유래암종으로 악성 변형될 위험성은 더 커진다. 다형선종유래암종 환자에서 전형적인 임상적 양상은 장기간의 다형선종 병력과(평균 10-15년) 갑작스러운 빠른 성장(평균 3-6개월)이다. 또한 통증과 안면마비가 종종 나타날 수 있다. Johns는 15년 이상 존재한 종양에서 9.4%의 비율로 악성 변형이 된 것에 비해 5년 이하의 종양에서는 1.6%만이 악성 변형 되었다고 보고하였다⁴. 이것은 다형선종의 조기발견 및 치료를 강조한다. 그러나 술 전 진단을 위한 세침흡인검사나 수술 중 동결절편검사의 정확성과 민감도는 1기 이하선 암종의 전체에 대한 검사보다 정확하지 않다고 한다^{5,6}.

광범위절제가 악성 타액선 종양을 지닌 환자에서 바람직한 결과를 위해 필수적이다. 한편, 임 등은 적절한 술 후 방사선 치료를 동반한 보존적 이하선 적출술이 안면마비와 같은 합병증을 줄일 수 있는 술식이라고 제안하였다⁷.

방사선 치료가 외과적 절제 후 국소적인 재발을 감소시키기 위한 보조요법으로 시행할 수 있으며 높은 등급의 종양 조직학, 거대 일차 병소, 신경주위 침윤, 골침범, 임파절 전이, 그리고 적절한 절제연을 지닌 환자들이나 수술이 불가능한 경우 또는 재발한 경우에 사용할 수 있다⁸⁻¹¹.

다형선종유래암종은 일반적으로 공격적인 양상을 보이

며 25-75%로 높은 재발률 및 전이율을 나타낸다¹². 특히 재발되거나 전이된 증례에서 더 불량한 예후를 보인다.

본 고실에서는 이하선에 장기간 지속되었던 다형선종으로부터 변형된 다형선종유래암종 2례를 치험하였기에 이에 대해 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다. 향후 재발 및 전이 여부 파악을 위해 주기적인 추적관찰이 필요하리라 사료된다.

참고문헌

1. Seifert G. Histopathology of malignant salivary gland tumours. *Eur J Cancer B Oral Oncol* 1992;28B:49-56.
2. Genelhu MC, Gobbi H, Soares FA, Campos AH, Ribeiro CA, Cassali GD. Immunohistochemical expression of p63 in pleomorphic adenomas and carcinomas ex-pleomorphic adenomas of salivary glands. *Oral oncol* 2006;42:154-60.
3. Henriksson G, Westrin KM, Carlsoo B, Silfversward C. Recurrent primary pleomorphic adenomas of salivary gland origin: intrasurgical rupture, histopathologic features, and pseudopodia. *Cancer* 1998;82:617-20.
4. Johns ME, Goldsmith MM. Incidence, diagnosis and classification of salivary gland tumors. Part 1. *Oncology (Williston Park)* 1989;3:47-56; discussion 56, 58, 62.
5. Zbaren P, Nuyens M, Loosli H, Stauffer E. Diagnostic accuracy of fine-needle aspiration cytology and frozen section in primary parotid carcinoma. *Cancer* 2004;100:1876-83.
6. Zbaren S, Caversaccio MD, Stauffer E. Carcinoma ex pleomorphic adenoma: diagnostic difficulty and outcome. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2008;138:601-5.
7. Lim YC, Lee SY, Kim K, Lee JS, Koo BS, Shin HA, et al. Conservative parotidectomy for the treatment of parotid cancers. *Oral oncol* 2005;41:1021-7.
8. Spiro RH. Salivary neoplasms: overview of a 35-year experience with 2,807 patients. *Head Neck Surg* 1986;8:177-84.
9. Konno A, Numata T, Nagata H, Terada N, Hanazawa T: Effects of TNM extension and histopathological type of the tumor on long-term survival rates of parotid and submandibular gland cancer. *Gan To Kagaku Ryoho* 1997;24:1347-53.
10. Beckhardt RN, Weber RS, Zane R, Garden AS, Wolf P, Carrillo R, et al. Minor salivary gland tumors of the palate: clinical and pathologic correlates of outcome. *Laryngoscope* 1995;105:1155-60.
11. Furukawa M, Suzuki H, Matsuura K, Takahashi E, Suzuki H, Tezuka F. Carcinoma ex pleomorphic adenoma of the palatal minor salivary gland with extension into the nasopharynx. *Auris Nasus Larynx* 2001;28:279-81.
12. Akan H, Yildiz L, Unal R. Carcinoma ex pleomorphic adenoma of the minor salivary gland with pulmonary metastasis. *Diagn Interv Radiol* 2008;14:3-5.