

# 다형선종 수술 후 발생한 이하선 점액표피양암종

고려대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실,<sup>1</sup> 병리학교실<sup>2</sup>

유준혁<sup>1</sup> · 박민우<sup>1</sup> · 백승국<sup>1</sup> · 채양석<sup>2</sup> · 정광윤<sup>1</sup>

= Abstract =

## A Case of Mucoepidermoid Carcinoma after Superficial Parotidectomy for Pleomorphic Adenoma

Joon-Hyuk Yoo, MD<sup>1</sup>, Min-Woo Park, MD<sup>1</sup>, Seung-Kuk Baek, MD<sup>1</sup>,  
Yang-Seok Chae, MD<sup>2</sup>, Kwang-Yoon Jung, MD<sup>1</sup>

Departments of Otolaryngology-Head and Neck Surgery<sup>1</sup> and Pathology,<sup>2</sup> Korea University College of Medicine, Seoul, Korea

Mucoepidermoid carcinoma is most frequent malignant tumor of parotid gland. However, mucoepidermoid carcinoma arising from pleomorphic adenoma has been disputed and rarely reported. 54-year-old woman with pleomorphic adenoma underwent superficial parotidectomy. And 15 years later, she diagnosed mucoepidermoid carcinoma at the same side. We report the case with a review of literature.

**KEY WORDS** : Mucoepidermoid carcinoma · Pleomorphic adenoma.

### 서 론

다형선종은 타액선의 가장 흔한 종양이다. 비록 양성으로 분류되어 있지만, 재발하는 경향 때문에 임상적 치료에 문제를 일으킬 수 있다.<sup>1)</sup> 다형선종의 일차 수술 후 국소재발의 위험을 높이는 인자로는 위축과 비교적 젊은 연령에 발생한 종양, 기질 풍부 변이, 불완전한 수술적 절제가 있을 수 있다.<sup>2)</sup> 재발성 다형선종은 다결절 병변이 우세하여 재발이 다발성으로 발생하는 경향이 있다.<sup>3)</sup>

재발성 다형선종에서 악성 변화를 보이는 확률은 문헌에 따라 5~20%로 보고하고 있다. 초치료시 나이가 40세 이상인 경우, 남성, 2cm 이상의 종양 크기, 재발 횟수에 따라 악성 변화의 위험성이 증가한다.<sup>4)</sup>

저자들은 좌측 이하선 천엽 기원의 다형선종으로 15년 전 이

하선 천엽절제술을 받았던 환자가 남아있는 이하선 심엽에 종물이 발견되어 이하선 전절제술을 시행하였으나 최종 병리조직검사에서 점액표피양암종으로 진단된 증례를 경험하였기 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증 례

54세 여자 환자가 약 5~6년 전부터 만져지는 좌측 이하부 종물을 주소로 내원하였다. 환자는 15년 전 본과에서 좌측 이하선 다형선종 진단 하에 이하선 천엽절제술을 시행받은 과거력이 있었다. 당시 최종병리학적 소견에서도 이하선 다형선종이었으며, 절제연은 양성이었다.

신체검사에서 이전 수술과 관련한 안면마비 소견은 없었고, 약 2×2cm 크기의 무통성으로 고정된 종물이 촉지되었다. 그 외 경부에서 촉지되는 종물은 없었다.

경부 타액선 전산화단층촬영에서 이하선 심엽에 약 2.1×2.9cm 크기의 경계가 일정하지 않고 이질적인 조영증강을 보이는 고체상의 타원형 종양이 관찰되었고, 양측 경부 IIa, IIb, Va구역과 좌측 III, IV구역에 다발성 림프절 종대가 있으며, 크기는 1cm 미만이나 일부에서 조영증강이 되는 소견이 관찰

Received : March 7, 2012 / Revised : May 7, 2012

Accepted : May 8, 2012

교신저자 : 정광윤, 136-705 서울 성북구 안암동5가 126-1

고려대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

전화 : (02) 920-5482 · 전송 : (02) 925-5233

E-mail : kyjung@kumc.or.kr

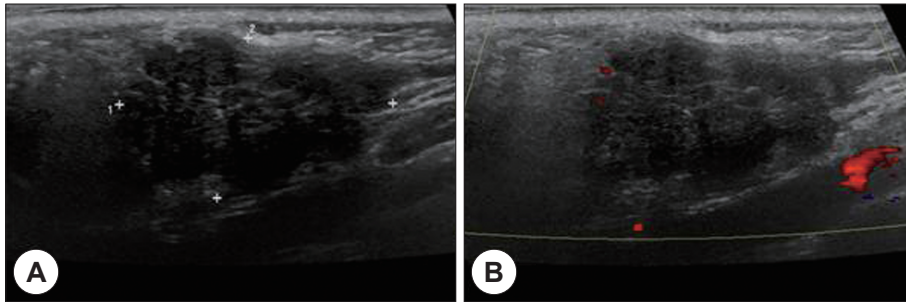
되어 이하선 침엽 국소 재발성 다형선종 또는 경부전이를 동반한 암종이 의심되었다(Fig. 1). 세침흡인검사를 위해 경부초음파검사를 시행하였다. 좌측 이하선에 2.9×1.7cm 크기의 저에코성 소엽상의 종양이 관찰되었고 종양내부에 혈행의 증가는 없었으며, 좌측 상경부로 약 0.7cm과 1.1cm의 림프절 종대와 좌측 흉쇄유돌근 외측에 약 0.9cm의 섬유종양상의 종양이 관찰되었다(Fig. 2). 좌측 이하선 종양에서 세침흡인검사를 시행하였고, 병리세포검사에서 근육상피세포를 포함하고 있는 이하선에서 유래한 양성 종양 소견이었다.

환자는 좌측 재발성 다형선종 의심하에 이하선 전절제술을 계획하였으며, 안면신경을 보존하기 위해 신경 감시기(Xomed NIM II ; Medtronic Inc.)를 안면부에 부착한 후 이전 수술 절개부를 통해 종양에 접근하였다.

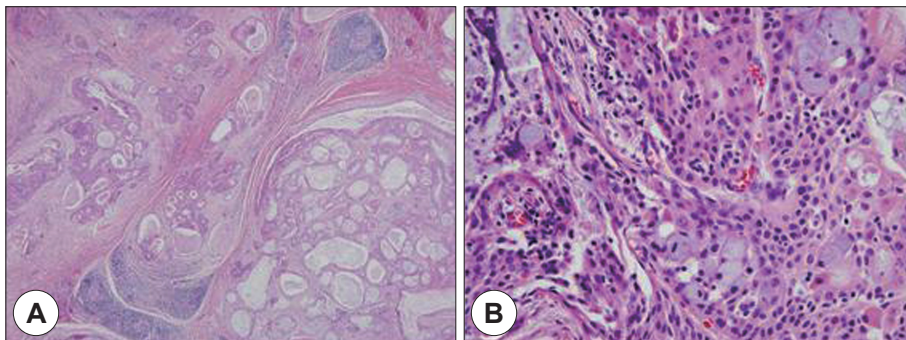
후방 접근법을 통해 안면신경을 찾아 하악분지 안면신경은 보존하였으나 종양 침엽부는 주변조직과 유착이 심하여 이복근의 후복과 경돌설골근의 일부는 절제하였다. 이하선내 림프절은 비대된 소견으로 함께 절제하였다. 적출된 종양은 최종 병리조직학적 검사에서 2.9×2.1cm의 저악성도 점액표피



**Fig. 1.** Preoperative axial(A) and coronal(B) CT scan of the neck. CT scan shows an ovoid-shape mass with 2.1 × 1.9 × 2.9cm size and irregular margin on left deep parotid gland(arrow).



**Fig. 2.** Preoperative neck sonography. A : It shows about 2.9×1.7cm size and lobulated hypoechoic mass in left parotid gland. B : The mass has no evidence of increased blood flow.



**Fig. 3.** Histopathologic findings. A : There are above 25% of intracystic component and no evidence of pleomorphic adenoma(H & E stain, × 40). B : There are no neural invasion, necrosis, mitosis and anaplasia(H & E stain, × 400). Low grade mucoepidermoid carcinoma is diagnosed according to Armed Forces Institute of Pathology(AFIP)-weighted mucoepidermoid carcinoma(MEC) grading criteria.

양암종으로 다형선종은 관찰되지 않았으며, 가장 가까운 자유 절제연은 0.1cm이었고, 림프절은 음성 소견이었다(Fig. 3). 환자는 술 후 안면마비는 발생하지 않았고, 점액표피양암종으로 확진 후 시행한 양전자방출단층촬영상 원발부위 외에 암종이 없음을 확인되었다.

자유 절제연이 가깝고 수술 중 주변조직과의 유착이 심하여 추가적으로 5400cGy의 방사선 치료를 받았으며, 치료 종료 1년 후 촬영한 양전자방출단층촬영에서 재발 및 원격 전이 소견은 없었다. 환자는 약 1년 4개월간 외래 추적 관찰하였으며 신체검사서 재발 소견은 없었다.

## 고 찰

다형선종유래 암종은 대개 타액선에서 발생하는 드물고 공격적이며 연구된 바가 많지 않은 악성종양이다. 고분화 암종이며 전이를 자주 동반하고 질병연관 사망을 일으키는 특징을 가진다. 잔류 혼합 종양 구성물이 매우 적은 경우와 다양한 유형의 암종이 있어 오진이 흔하다.<sup>5)</sup>

다형선종유래 암종은 형태학적, 면연조직학적으로 선암종, 미분류암종(Not otherwise specified), 타액선관 상피암, 점액표피양암종과 같은 관상피(ductal epithelial) 분화를 보이는 아형과 근상피암종, 상피근상피암종, 선방암종과 같은 근상피(myoepithelial) 분화를 보이는 아형의 두가지의 아형으로 분류 할 수 있다.<sup>6)</sup>

다형선종유래 암종은 모든 타액선 종양의 3.6%(0.9~14%)로 보고되며 타액선 악성종양의 11.7%(2.8~42.4%)로 보고되고 있다.<sup>7)</sup> 또한, 이하선 악성종양의 2~17%가 다형선종유래 암종으로 보고 되었으며, 재발성 다형선종의 7.1%에서 악성 변화를 보인다.<sup>5)</sup> 이 중 다형선종유래 점액표피양암종은 타액선 종양의 0.3%에서 발생하는 것으로 보고 되었다.<sup>8)</sup> 혼합종의 기간이 길수록 악성의 위험성이 높으며, 치료받지 않은 혼합종에서 25%까지 암종으로 발전하는 것으로 알려져 있다.<sup>5)</sup>

혼합종 성분은 그 크기가 매우 작은 경우 판별하기 어렵다. 따라서 타액선의 고분화 암종일 경우 병리의는 암종과 연관된 잔류 혼합종을 찾기 위해 주의를 기울여야 한다.<sup>9)</sup> 그럼에도 혼합종을 찾을 수 없는 경우에는 혼합종이 전부 악성성분으로 대체되었을 가능성을 고려해야 한다.<sup>5)</sup>

기존의 다형선종에서 악성종양세포로 치환된 부위가 분명하게 관찰되는 경우는 다형선종유래 암종으로 진단을 내리기 쉽지만, 다형선종의 부위가 거의 남아있지 않은 경우나 혼합종이 모두 암종으로 치환된 경우 진단에 어려움을 겪을 수 있음을 염두에 두어야 하며, 서서히 자라는 종양의 경우에는 다형선종유래 암종의 가능성을 배제하지 않아야 하겠다.

본 증례의 경우 병리조직검사서 점액표피양암종 외에 다

형선종은 관찰되지 않아 점액표피양암종이 다형선종과는 무관하게 발생한 것인지, 절제연 양성 부위에서 서서히 점액표피양암종으로 치환된 것인지를 명확하게 판단하기는 어렵다. 환자의 다형선종 초치료시 나이가 40대이었고 이전 수술시 절제연이 양성이었으며 15년만에 재발이 확인되었다는 점에서 다형선종유래 점액표피양암종을 시사하는 소견이지만, 반면에 여성 환자로 초기 종양의 크기가 2cm를 넘지 않았고 병리조직학적으로 다형선종은 관찰되지 않았다는 점은 원발성 점액표피양암종을 시사하는 소견이라고 판단 할 수도 있다.

다형선종유래 암종은 발생빈도가 높지 않은 암으로 이에 대한 이해가 부족하다는 것을 인지하고 추후 다형선종을 수술적 절제를 한 후 동측에 발생한 이하선 악성종양에 대한 증례들을 모아 분석해보는 추가적인 연구가 필요할 것으로 사료된다.

**중심 단어 :** 점액표피양암종 · 다형선종.

## References

- 1) Barnes Le Jwr P, Sidransky D. *World Health Organization classification of tumors. Lyon: Pathology & Genetics: Head and neck tumors;2005. p.254-258.*
- 2) Hamada T, Matsukita S, Goto M, Kitajima S, Batra SK, Irimura T, et al. *Mucin expression in pleomorphic adenoma of salivary gland: A potential role for MUC1 as a marker to predict recurrence. J Clin Pathol. 2004;57(8):813-821.*
- 3) Soares AB, Altemani A, De Araújo VC. *Study of histopathological, morphological and immunohistochemical features of recurrent pleomorphic adenoma: An attempt to predict recurrence of pleomorphic adenoma. J Oral Pathol Med. 2011;40(4):352-358.*
- 4) Phillips PP, Olsen KD. *Recurrent pleomorphic adenoma of the parotid gland: Report of 126 cases and a review of the literature. Ann Otol Rhinol Laryngol. 1995;104(2):100-104.*
- 5) Kerry D, Olsen, Jean E. Lewis. *Carcinoma ex pleomorphic adenoma: A clinicopathologic review. Head & Neck. 2001;23(9):705-712.*
- 6) Kim JW, Kwon GY, Roh JL, Choi SH, Nam SY, Kim SY, et al. *Carcinoma ex pleomorphic adenoma of the salivary glands: Distinct clinicopathologic features and immunoprofiles between subgroups according to cellular differentiation. J Korean Med Sci. 2011;26(10):1277-1285.*
- 7) Gnepp DR. *Malignant mixed tumors of the salivary glands: A review. Pathol Annu. 1993;28 Pt 1:279-328.*
- 8) Klijanienko J, El-Naggar AK, Servois V, Rodriguez J, Validre P, Vielh P. *Mucoepidermoid carcinoma ex pleomorphic adenoma: nonspecific preoperative cytologic findings in six cases. Cancer. 1998;84(4):231-234.*
- 9) Lewis JE, McKinney BC, Weiland LH, Ferreiro JA, Olsen KD. *Salivary duct carcinoma. Clinicopathologic and immunohistochemical review of 26 cases. Cancer. 1996;77(2):223-230.*