

경부 전이성 이하선암과 유사한 양상의 이하선내외에 동시 발생한 편측성 왈틴씨 종양 1예

중앙보훈병원 이비인후과
사대진 · 광슬기 · 김춘동 · 김승우

= Abstract =

Unilateral Synchronous Intra-and Extra-Parotid Warthin's Tumor, Presenting as a Similar Pattern of Cervical Metastasis from Parotid Cancer : A Case Report

Dae Jin Sah, MD, Seul Gi Kwak, MD, Choon Dong Kim, MD, Seung Woo Kim, MD

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, VHS Medical Center, Seoul, Korea

Warthin's tumor is the second most common tumor of the parotid gland after pleomorphic adenoma. It is well known to occur as bilateral and multiple patterns. The incidence of extraparotid Warthin's tumor (EPWT) is about 2.7% to 12%, peri-parotid and upper cervical area are the most common sites. Warthin's tumor with synchronous intraparotid and extraparotid area is extremely rare, only a few cases have been reported. We report a 71-year old man with unilateral swelling of the parotid area and upper neck, pathologically confirmed Warthin's tumor with literature review.

KEY WORDS : Warthin's tumor · Intraparotid · Extraparotid.

서 론

이하선에 주로 발생하는 왈틴씨 종양은 이하선 침샘 종양의 약 34%를 차지한다.¹⁾ 주로 양측성, 다중심성, 동시성, 이시성, 혹은 이하선 외에도 발생할 수 있다고 알려져 있다.²⁾ 또한 이하선 외에서 생기는 경우는 주로 이하선 주변이나 상경부의 림프절에서 발생한다고 알려져 있으며, 턱밑샘, 구강, 인두, 후두 등의 소타액샘에서도 발생한다고 보고되고 있다.³⁾ 이하선 내외의 동시 발생에 대한 보고는 다발성, 양측성으로 이하선 내외에 발생한 경우와 편측으로 동시에 이하선과 경부에서 발생하는 경우 등이 있다.⁴⁾

저자들은 이하선 종양과 동측에 석회화된 상경부 림프절을

을 동반하여 이하선암의 양상을 보인 이하선과 경부에 동시성으로 발생한 왈틴씨 종양 1예를 치험하고, 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

71세 남자가 약 7개월 전부터 시작된 우측 이하선 종괴를 주소로 내원 하였다. 과거력상 2005년 위암 절제술 시행 받았고, 당뇨 이외에 특이 소견은 없었다. 신체 검사상 우측 이하선 부위에 약 3×2cm 크기의 단단하며, 압통이 있고, 고정된 종괴가 관찰되었다. 우측 상경부에도 1×1.5cm 정도의 비교적 단단한 압통성 종괴가 촉지 되었고, 안면신경 마비 등의 소견은 관찰되지 않았다. 경부 전산화 단층 촬영상 우측 이하선에 3×2.5cm 크기의 종괴, 0.7×1.3cm 크기의 상경부의석회화 병변 및 약 0.5×0.8cm 크기의 석회화를 동반한 좌측 갑상선 결절이 관찰되었다(Fig. 1). 경부 초음파 소견상 우측 이하선 천엽에 약 2.8×1.3cm 크기의 저음영 에코결절, 상경부에 약 0.6×0.4cm의 석회화 결절 및 좌측 갑상선에 0.6×0.8cm가량의 동등 에코 결절이 있

Received : March 10, 2013 / Revised : April 8, 2013

Accepted : April 8, 2013

교신저자 : 김승우, 134-791 서울 강동구 둔촌동 6-2

중앙보훈병원 이비인후과

전화 : (02) 2225-1384 · 전송 : (02) 2225-1385

E-mail : djs0@hotmail.com

어 세침흡인 검사를 시행 하였다. 우측 이하선에서 왈틴씨 종양 소견을, 우측 상경부 종괴는 비정형(atypical) 세포소견 보였고, 좌측 갑상샘 결절에서는 베테스타 분류 VI의 소견을 보였다. 이상의 소견을 종합하여 이하선 왈틴씨 종양 또는 이하선암의 경부전이, 좌측 갑상선 유두상 암종 등으로 진단하고, 우측 천층 이하선 적출술, 경부 절제생검 및 갑상선 전적출술과 중심 림프절 제거술을 시행 하였다. 수술 소견상 우측 이하선 종괴는 주변 조직과의 유착이 있어서 어렵게 박리되었고, 이하선 수술의 절개선을 하방으로 견인하자 상경부 종괴가 노출되어, 같은 시야에서 제거 할 수 있었다(Fig. 2). 상경부 종괴는 약간의 출혈이 있었지만, 비교적 주변 조직과 잘 박리되었다. 상경부는 동결절편검사서 왈틴씨 종양으로 진단되어 절제생검만으로 수술을 종료하였다. 최종 조직검사상 우측 이하선과 상경부 종괴 모두 왈틴씨 종양으로 확진 되었고, 갑상선 결절은 유두상 암종으로 진단되었다(Fig. 3). 술 후 1년이 지난 현재 외래에서 특이 소견 없이 추적 관찰 중이다.

고 찰

왈틴씨 종양은 다형성종에 이어 두번째로 흔한 침샘 종양으로 알려져 있다. 병인에 대해서 완벽히 밝혀져 있지는 않으나, 흡연자에서 비흡연자와 비교해 약 8배 정도로 잘 생기며, 흡연

외에 자가면역성 질환과도 연관이 있다고 알려져 있다.²⁾

왈틴씨 종양의 약 4~10%에서 양측성으로 발병한다고 하며 다발성으로 주로 발생한다. 약 4%의 다발성 왈틴씨 종양이 동측 이하선에 국한되어 나타난다고 알려져 있다. 이런 다발성과 양측성 특징을 자주 보이는 이유는 왈틴씨 종양의 병리학적인 발생과 연관되어 있다. 왈틴씨 종양 발생은 아직 명확하지는 않으나, 두 가지 가설이 있다. 이소성 이식 이론과 지연성 과민반응에 의해 발생한다는 가설이 알려져 있고, 이중 전자가 정설로 받아들여진다.^{5,6)} 이소성 이식 이론은 이하선의 발생에서, 구

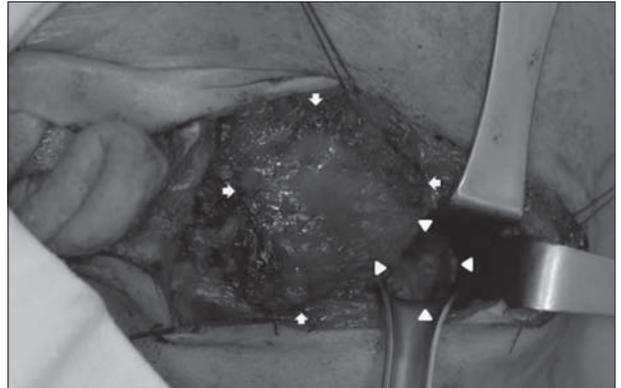


Fig. 2. Intraoperative finding. These show a parotid(white arrow) and extraparotid mass in upper cervical region(white arrowhead).

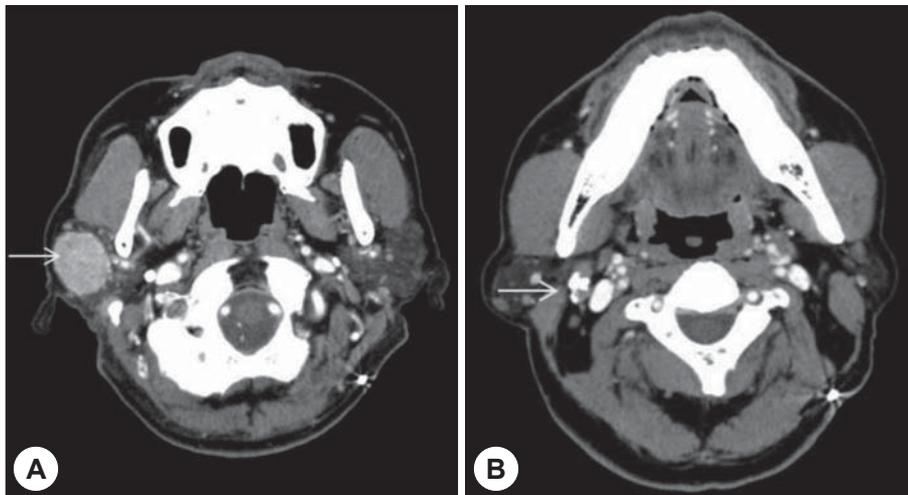


Fig. 1. Preoperative CT scans show a right parotid mass(A) and a calcified mass in upper cervical region(B).

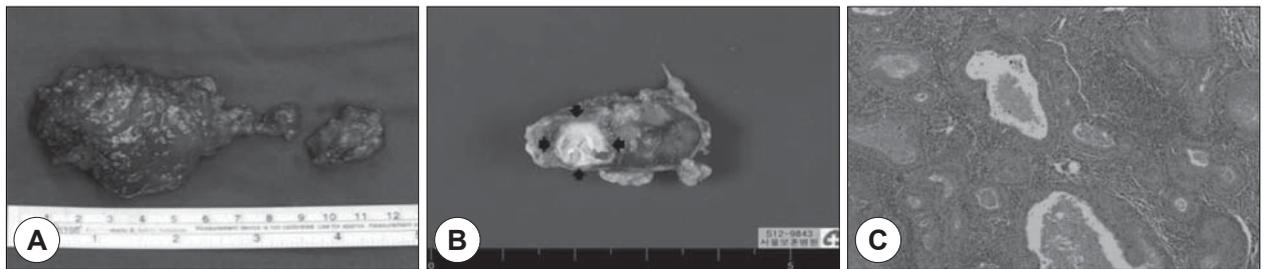


Fig. 3. A : Gross finding of the parotid and upper cervical mass. B : Bisected specimen of upper cervical mass. It shows a calcific lesion in the inner left side of mass(black arrow). C : Dense population of lymphocyte and oncocytic cells which is typical findings of Warthin's tumor(H&E stain, original magnification $\times 100$).

강 점막의 상피세포가 림프구가 많은 조직으로 뚫고 들어가며, 이러한 이하선의 내부 또는 인접부위의 림프절 내에 존재하는 이소성 타액선 조직에 의해서 왈턴씨 종양이 발생하게 된다는 가설이다. 이하선은 상대적으로 피막형성이 늦어 미분화된 림프 조직과 침샘관의 분지가 섞일 수 있고 따라서 태생학적으로 초기에 피막이 형성되는 악하선이나 설하선의 경우에는 이하선 외 종양이 드물다고 할 수 있다.⁶⁻⁸⁾ 하지만 이러한 가설로 상경부 등의 이하선 주위에 발생하는 이하선의 왈턴씨 종양은 설명이 가능하지만 림프양 조직이 없는 턱밑샘이나 비인두, 후두, 부비동 등에서 발생하는 이하선의 왈턴씨 종양의 경우는 설명하기 어렵다. 따라서 Synderman 등은 이러한 경우 왈턴씨 종양으로 분류하기 보다는 종양성 유두낭샘종으로 분류해야 한다고 주장했다.^{2,9)} 이하선의 왈턴씨 종양의 추정되는 다른 기전으로는 새열의 잔존물로부터 발생했다는 주장과, 인두낭의 비정상적인 침샘의 조직이 발생학적으로 감상샘과 부감상샘이 아래로 내려올때 같이 따라서 내려와 발생했을 것 이라는 보고가 있다.⁶⁾

이하선의 왈턴씨 종양은 주로 상경부에 국한된 천천히 자라는 종괴의 양상으로 발견되게 된다. 주로 턱밑샘, 후두, 볼, 구인두, 아래 입술, 혀점막, 상경부(level I, II) 등에서 발생한다고 알려져 있으며 약 2.7%에서 12%로 발병한다.⁶⁾ 이하선의 왈턴씨 종양은 상경부 림프절에 발생하는 경우가 가장 빈번하며 염증과 괴사를 잘 동반하여 상경부 림프절에 발생한 이하선의 왈턴씨 종양과 동시에 발생한 일차성 결핵성 림프절염도 보고되어 있다.⁵⁾ 왈턴씨 종양의 경우 다른 침샘의 종양에 비해서 세침흡인검사의 진단률이 상대적으로 낮은 61~84%로 알려져 있다. 그 이유는 림프구와 종양세포가 동시에 존재해야 진단할 수 있으며, 종양 내에 이차성 변화가 흔하기 때문이다. 왈턴씨 종양의 악성화는 0.06~3%로 매우 드물며⁷⁾ 다병소성 및 낮은 악성화로 인해 재발율은 5~25%로 알려져 있다.⁴⁾

현재까지 편측성 이하선내외 왈턴씨 종양의 경우 1례가 보고되어 있으며, 상경부의 림프절에서 세침흡인세포 검사상 비정형 세포의 소견을 이하선암의 경부 전이도 고려하여 수술하였으나, 동결절편 검사상 이하선의 왈턴씨 종양으로 진단되었다. 치료로는 이하선 종양과 같이 수술적으로 제거하는 것이 일반적이다.

본 증례의 경우 이하선 종양과 상경부에 석회화를 동반한

림프절이 있고, 신체검사상 이하선 종물의 압통과 주위 조직과의 유착이 이하선암의 경부 전이도 술 전 감별진단에 포함했었다. 또한 본 종양의 경우 세침흡인검사에서 가양성, 가음성의 가능성이 다른 이하선 종양보다 높아, 본 증례처럼 림프절 세침흡인검사에서 비정형 세포가 나온 경우 악성을 배제 할 수 없고, 술 중에 동결절편검사를 반드시 시행하는 것이 좋겠다. 이하선과 상경부에 종괴가 있는 경우에 드물지만 편측성 이하선내외 왈턴씨 종양도 감별진단에 포함 되어야 하겠다.

중심 단어 : 왈턴씨 종양 · 이하선내 · 이하선외.

References

- 1) Shah N, Tighe JV, Barrett AW, Kumar S, Allen JP. *Bilateral intraparotid and extraparotid Warthin's tumors. J of Oral Maxillofacial Surgery.* 2007;45(3):238-239.
- 2) Astor FC, Hanft KL, Rooney P, Benson CA, Flores CT, Lavertu P. *Extraparotid Warthin's tumor: clinical manifestations, challenges, and controversies. Otolaryngol Head Neck Surg.* 1996;114(6):732-735.
- 3) Patterson JW, Wright ED, Camden S. *Extraparotid Warthin's tumor. J Am Acad Dermatol.* 1999;40(3):468-470.
- 4) Chae SW, Sohn JH, Shin HS, Choi JJ, Kim YB. *Unilateral, multicentric Warthin's tumor mimicking a tumor metastatic to a lymph node. A casereport. Acta Cytol.* 2004;48:229-233.
- 5) Hwang JY, Kim SW, Yang SC, Kim CD. *Extraparotid Warthin tumor in upper cervical lymph node accompanied by primary cervical tuberculosis. Otolaryngol Head Neck Surgery.* 2011;144(4):646-647.
- 6) Choi KM, Yang SC, Kim SW. *Two cases of extraparotid Warthin's tumor in lateral cervical region. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg.* 2010;26(2):232-235.
- 7) Choi JO, Ju EJ, Kim WJ, Choi HY, Chu HR, Choi G, et al. *Selection of surgical treatment for Warthin's tumors of parotid: Experience in 20 cases. Korean J Otolaryngol Head Neck Surg.* 1999;42:501-504.
- 8) Teymoortash A, Krasnewicz Y, Werner JA. *Clinical features of cystadenolymphoma(Warthin's tumor) of the parotid gland: A retrospective comparative study of 96 cases. Oral Oncology.* 2006;42:569-573.
- 9) Snyderman C, Johnson JT, Barnes EL. *Extraparotid Warthin's tumor. Otolaryngol Head Neck Surg.* 1986;94:169-175.