

악하선에 발생한 낭샘암종

충남대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실,¹ 의학연구소²

박지수¹ · 구본석^{1,2}

= Abstract =

Cystadenocarcinoma Arising from Submandibular Gland

Ji Su Park, MD¹, Bon Seok Koo, MD, PhD^{1,2}

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,¹ Research Institute for Medical Sciences, School of Medicine,² Chungnam National University, Daejeon, Korea

Cystadenocarcinoma of salivary gland is an rare, slow-growing, low-grade malignant neoplasm characterized by cysts and papillary endocystic projections. Major locations of this tumor are parotid glands, and minor salivary glands, while occurrence in submandibular gland is extremely rare. Only few cases have been reported in the literatures. Cystadenocarcinoma behaves in an indolent manner and recurrence is rarely occurred, surgical complete excision is considered treatment of choice. We experienced a case of cystadenocarcinoma arising from submandibular gland, so we report this case with a review of literature.

KEY WORDS : Cystadenocarcinoma · Submandibular gland.

서 론

낭샘암종은 타액선에 발생하는 매우 드문 악성 종양으로서 1991년 WHO 분류법에 의해 유두상 낭샘암종으로 처음 규정되었고 2005년 개정된 분류에서 낭샘암종으로 다시 명명되었다.¹⁾ 주로 이하선이나 설하선, 소타액선에 발생하며 악하선에 발생하는 것은 매우 드문 것으로 알려져 있고, 국내에서는 2006년 1예가 보고된 바 있다.²⁾

최근 저자들은 좌측 악하선 부위의 만져지는 종물을 주소로 내원한 45세 여자 환자에서 악하선 절제술을 시행하였고 조직학적 진단을 통해 낭샘암종으로 확진된 예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

45세 여자환자가 내원 2년 전 처음 발견한 서서히 자라는 좌측 악하부의 종물을 주소로 내원하였다. 신체 검사에서 좌측 악하부로 약 3 cm 크기의 무통성의 가동성이 있는 종물이 촉지되었고 다른 경부에 이상소견은 없었다.

경부 전산화 단층 촬영에서 좌측 악하선의 내부에 다수의 낭샘 변화를 동반한 장경 약 1.6 cm 크기의 종물이 관찰되었고 약하지만 불균질하게 조영증강되는 소견이 관찰되었다(Fig. 1). 양측 경부 림프절에는 이상소견이 관찰되지 않았다. 종물에 대하여 세침흡인검사를 시행하였고 결과에서 약간의 침샘조직과 함께 림프구가 관찰되었다. 이상의 소견으로 악하선에 발생한 Warthin 종양으로 생각하여 수술을 결정하였다.

수술은 일반적인 악하선 절제술의 술기에 따라 시행되었고 수술 중 설하신경이나 변연 신경의 손상은 없었다. 종괴의 주변조직과의 유착이나 주변 구조물로의 침범은 관찰되지 않았다. 절제된 악하선은 약 3.5×2.7×1.7 cm였고 내부에 약 1.6×1.5 cm 크기의 다수의 낭샘 구조물을 포함한 종물이 관찰되었다(Fig. 2).

Received : July 17, 2015 / Revised : September 4, 2015

Accepted : October 8, 2015

교신저자 : 구본석, 35015 대전광역시 중구 문화로 282

충남대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

전화 : (042) 280-7695 · 전송 : (042) 253-4059

E-mail : bskoo515@cnuh.co.kr



Fig. 1. Preoperative CT findings. Heterogenously enhancing multi-cystic lesion in left submandibular gland. (white arrow)

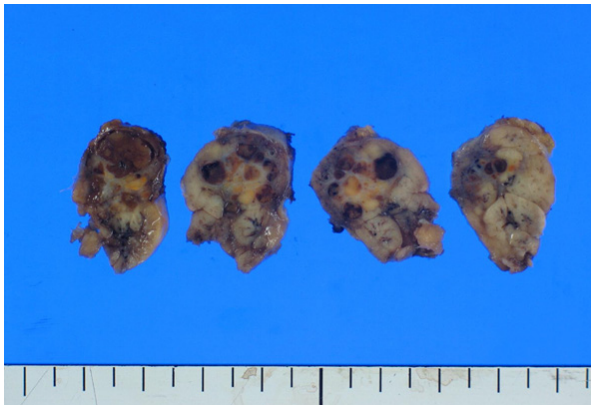


Fig. 2. Gross findings of submandibular gland mass . Salivary gland with multi-cystic mass measuring 1.6 x 1.5 cm in size.

수술 후 조직병리소견에서 원주형의 난형의 상피세포로 이루어진 상피조직이 유두상 구조를 이루고 있었고 주로 호산성 염색을 보이는 소입방형의 낭샘 구조물이 관찰되었다. 이 종양은 침샘 실질로의 침윤은 보였으나 주변 혈관이나 주위 조직으로의 침윤은 관찰되지 않고 침샘 실질에 국한된 양상을 보였으며, 충분한 절제연이 확보되었다 (Fig 3). 조직병리검사를 통하여 최종적으로 낭샘암종으로 진단하였고 경부 전이 가능성을 고려하여 양전자 단층 촬영하였고 전이소견 관찰되지 않아 주기적인 경과 관찰하기로 하였다.

수술 후 특별한 부작용은 없었고 수술 후 3개월 후 시행

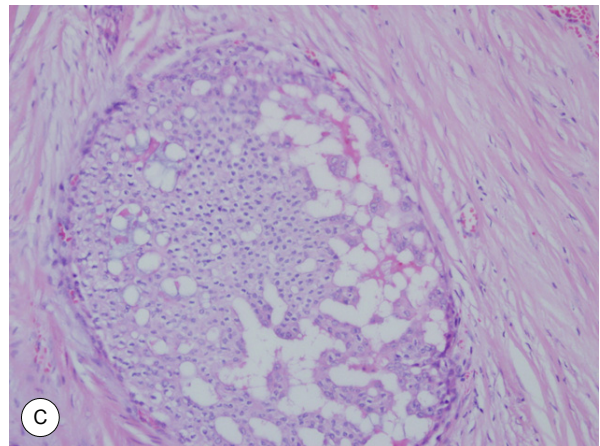
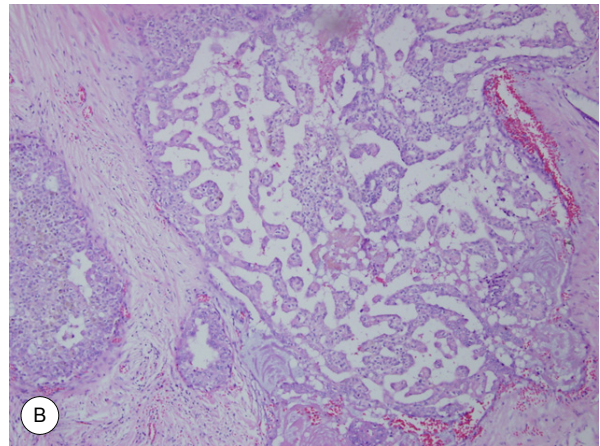
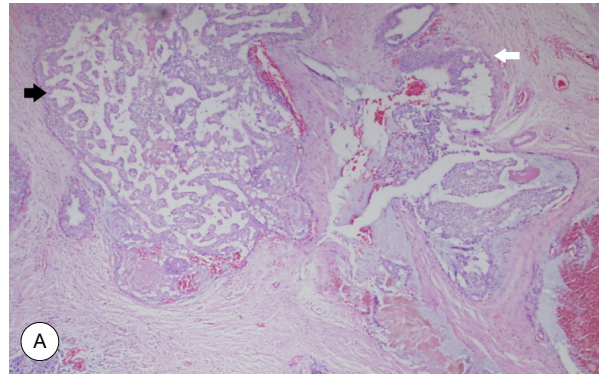


Fig. 3. Histopathologic finding of case. A : The cyst is multi-locular (White arrow) and filled with numerous irregular shaped papillae (Black arrow) [H & E, ×40]. B : Cystic portion of the tumor which was filled with papillary projection [H & E, ×100]. C : The tumor cells were uniform without significant cytologic and nuclear atypia. It displayed round to oval nuclei with fine chromatin and pale to amphophilic cytoplasm. [H & E, ×200].

한 전산화 단층 촬영에서도 이상소견이 관찰되지 않았고 12개월 동안 재발없이 추적 관찰 중이다.

고 찰

유두상 낭샘암종은 1991년 WHO의 보고에 의하여 유두상 내장성 투사와 낭샘관강을 특징으로 하는 저악성도 중

양으로 분류되었고 2005년 개정된 WHO의 분류에서 보고된 모든 예에서 유두상 구조를 보이지 않기 때문에 낭샘암종으로 다시 명명되었다.¹⁾

낭샘암종은 매우 드물게 발생하는 타액선 종양으로 주타액선 중에서는 이하선에 발생하는 경우가 대부분이며 설하선에서도 드물게 발생하며 다양한 소타액선(구개, 설, 구강저) 에도 발생할 수 있으나 입술에서 호발한다고 보고되었다.³⁾ 주타액선 중 악하선에 발생하는 경우는 매우 드문 것으로 알려져 있는데 문헌 고찰을 통해 확인한 결과 악하선에 단독으로 발생하는 경우는 전 세계적으로 5예에 불과하였고 국내에서는 1예가 보고된 바 있다.^{1,2,4,7)} 임상적으로는 서서히 자라는 무통성의 종괴를 주소로 내원하는 경우가 가장 흔하나 드물게 통증이나 경부 종괴가 동반되기도 하였다.⁵⁾ 본 증례에서는 악하선의 서서히 자라는 무통성 종괴로 내원하여 임상적으로 악성이 의심되지는 않았다.

세침흡인 조직검사는 진단에 도움을 줄 수 있으나 다양한 침샘 종양과의 감별진단에 대해서는 논란이 있다. 기본적으로 흡인된 낭액에 일부 저세포성의 종양 세포가 관찰되고 유두상 군집을 이루지 않는 경우도 있고, 세포 내부에 액포를 포함하는 경우가 있어 유두상 점액표피양 암종이나 Warthin 종양 등과의 감별은 쉽지 않다. 하지만, 몇몇 보고에서는 유두상 군집으로 보이고 대식 세포와 액포를 포함하는 종양 세포가 관찰되어 세침 흡인 검사로 낭샘암종을 의심할 수 있다고 하였다.⁶⁾ 본 증례에서 시행한 흡인 검사에서는 종양 세포는 관찰되지 않고 정상 침샘 조직과 주변의 림프구만 관찰되어 감별에 한계가 있었다.

현미경 검사에서는 현저한 낭샘관강을 따라 난형의 세포들이 군집을 구성하여 원주형이나 입방형의 구조를 이루는 것이 특징이며 많은 경우에 유두상 내장성 투사를 갖는데 주변 조직에 대한 침습 소견, 유사분열의 존재, 핵산의 이형성 정도를 가지고 악성화를 판단할 수 있다.^{7,8)}

전산화 단층 촬영이나 자기 공명 영상으로 종물의 존재 및 종물의 성상이나 침윤성을 확인할 수 있고 침샘이나 주변 구조물과의 관계를 명확히 볼 수 있다. 전산화 단층 촬영에서 종양은 주변과 비교적 잘 구분되며 비균질하게 조영 증강된다. 본 증례에서 시행한 단층 촬영에서는 다낭성의 악하선 내부에 국한된 종물이 약한 조영 증강을 보이

는 것을 확인할 수 있었다.

낭샘암종은 매우 드문 악성 암종으로 치료에 대해서도 아직 명확한 방침이 정립되어 있지 않지만, 대부분의 경우 림프선이나 원격 전이가 없어 원발 부위의 국소 절제만으로 충분하다고 하였으며 많은 예에서 재발이 발생하지 않았다고 보고하였다.^{2,3)} 원발 부위에 재발한 경우 추가적인 수술적 제거가 필요하며 주변 림프선에 전이가 의심되거나 재발하는 경우에는 수술적 제거 후 방사선 치료로 좋은 결과를 기대할 수 있다고 하였다.³⁾

중심 단어 : 낭샘암종 · 악하선.

References

- 1) Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D. *World Health Organization classification of tumours; Pathology and genetics of head and neck tumours*. Lyon: IARC Press; 2005. p.232-233.
- 2) Kim SG, Park SK, Kim MG, Lee KD. *A case of papillary cystadenocarcinoma arising from submandibular gland*. *Korean J Otolaryngol*. 2006;49:942-945.
- 3) Foss RD, Ellis GL, Auclair PL. *Salivary gland cystadenocarcinomas. A clinicopathologic study of 57 cases*. *Am J Surg Pathol*. 1996;20:1440-1447.
- 4) A Harimaya, Y Somekawa, M sasaki, T ohuchi. *Cystadenocarcinoma (papillary cystadenocarcinoma) of the submandibular gland*. *J Laryngol Otol*. 2006;120:1077-1080.
- 5) Etit D, Ekinci N, Evcim G, Onal K. *Papillary cystadenocarcinoma originating from a minor salivary gland with lymph node metastases*. *Ear Nose Throat J*. 2011;90:E6-E7.
- 6) Akihiko K, Hiroshi H, Hiroyuki M, Jun A, Masayoshi K. *Cytological features of cystadenocarcinoma in cyst fluid of the parotid gland: Diagnostic pitfalls and literature review*. *Diagn Cytopathol*. 2010;38:377-381.
- 7) Cavalcante RB, da Costa Miguel MC, Souza Carvalho AC, Maia Nogueira RL, Batista de Souza L. *Papillary cystadenocarcinoma: report of a case of high-grade histopathologic malignancy*. *Auris Nasus Larynx*. 2007;34:259-262.
- 8) Aloudah NM, Raddaoui E, Aldahri S, Al-Abadi MA. *Low-grade papillary cystadenocarcinoma of the parotid gland: presentation of a case with cytological, histopathological, and immunohistochemical features and pertinent literature review*. *Diagn Cytopathol*. 2009;37:128-131.