

경부전이를 동반하여 이하선에 발생한 기저세포선암 1예

순천향대학교 의과대학 천안병원 이비인후과-두경부외과,¹ 연세대학교 의과대학 이비인후과학교실,²
가톨릭 관동대학교 국제성모병원 이비인후과,³ 순천향대학교 의과대학 천안병원 병리과학교실⁴
박재홍¹ · 김원식² · 변형권² · 홍현준³ · 정혜연⁴ · 반명진¹

= Abstract =

A Case of Basal Cell Adenocarcinoma with Neck Metastasis in the Parotid Gland

Jae Hong Park, MD¹, Won Shik Kim, MD², Hyung Kwon Byeon, MD²,
Hyun Jun Hong, MD, PhD³, Hae Yoen Jung, MD⁴, Myung Jin Ban, MD¹

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,¹ Soonchunhyang University College of Medicine,
Cheonan, Korea

Department of Otorhinolaryngology,² Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Department of Otorhinolaryngology,³ Catholic Kwandong University College of Medicine, Incheon, Korea

Department of Pathology,⁴ Soonchunhyang University College of Medicine, Cheonan, Korea

Basal cell adenocarcinoma is a extremely rare low grade malignancy of the salivary gland. It is composed of basaloid cells with dark cell, light cells and pale cytoplasm which shows infiltrative growth pattern into adjacent glandular parenchyme. The pathophysiology of basal cell adenocarcinoma is not well known. First hypothesis is a malignant transformation of the monomorphic adenoma and second one is a de novo origin. Metastasis to the regional lymph nodes is rare. Recently, we have experienced a case of basal cell adenocarcinoma with neck metastasis after previous superficial parotidectomy. For this reason we report this rare case discussed with references.

KEY WORDS : Basal cell adenocarcinoma · Total parotidectomy.

서 론

기저세포선암은 타액선에 생기는 드문 종양으로 문헌상 최근(1991)에 분류되어 그 증례가 보고되고 있다. 이 종양은 주로 주타액선, 특히 이하선에서 호발하며 드물게 소타액선에서 발생하기도 한다. 조직학적으로 양성 기저세포 선종과 유사하나 주변 조직으로 침윤하여 신경 및 혈관을 침범하며 잠재 전이 또한 드물게 발생하는 특징을 가진다. 그러나 기저세포선암은 저등급 타액선암으로 진단 당시 경부 임파절의 침범이 동반된 증례의 보고는 매우 드물다. 최근 저자들은 82세 남자환

자의 좌측 이하선에 발생한 기저세포선암과 이와 동반된 경부 전이 병소 1례를 치료하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자는 82세 남자로 좌측 이개 전부와 좌측 경부 제2구역의 무통성 종괴를 주소로 내원하였다. 5년 전 modified Blair incision으로 표층 이하선 절제술을 받은 과거력이 있었으나 병원이 폐업하여 의무기록을 찾을 수 없었다. 이후 추가적인 치료 없이 지내오다 최근 점차 커지는 종물로 본원에 내원하였다. 내원 당시 좌측 이개 전부에 약 5×3 cm 크기의 종괴가 촉지 되었으며 경성의 주변조직과 유착된 양상이었다. 좌측 경부 제 2구역에서 약 2 cm 크기의 경성종물이 표층에서 촉지 되었고, 좌측 감상선에서도 약 2 cm 크기의 연조직 종물이 촉지되었다(Fig. 1). 혈액검사 등의 임상검사는 정상 소견이

Received : March 15, 2015 / Revised : March 27, 2015

Accepted : April 29, 2015

교신저자 : 반명진, 330-721 충남 천안시 동남구 순천향6길 31

순천향대학교 의과대학 천안병원 이비인후과학교실

전화 : (041) 570-2265 · 전송 : (041) 579-9022

E-mail : mjbanent@gmail.com

있으며 안면마비 소견은 보이지 않았다. 경부 CT에서 좌측 이하선에 3×2 cm 크기의 비균질 조영증강 소견을 보이는 종양과 좌측 경부 II 구역에서 다수의 전이 경부 림프절 소견이 관찰되었고 갑상선 좌측엽에서 2 cm 크기의 낭종이 관찰되었다. 이하선 종양과 경부림프절에 대한 초음파 유도 생검에서는

악성종양의 가능성을 시사하는 비정형 상피세포가 관찰되어 악성종양 의심 하에 병기설정 검사를 시행하였다. 경부 MRI에서 이하선 종양은 이하선에 국한된 양상이었으나 경상유양공 부위까지 침범된 양상으로 안면신경의 침범가능성이 의심되었다. PET CT 검사에서 상기한 경부림프절 외에 비정상 FDG 섭취를 보이는 전이 소견은 보이지 않았다(Fig. 2). 좌측 이하선에 발생한 원발성 암종 의심하에(cT4aN2bM0) 좌측 광범위 이하선 적출술과 좌측 경부절제술 및 술 후 보조적 방사선 치료를 시행하기로 계획하였다. 경상유양공 부위에 종양침범이 있다면 술 중 침범된 안면신경 근위부의 불가피한 절제 및 신경재건술의 가능성을 고려하였다. 수술은 modified Blair incision을 통해 피관거상 후 경부의 임파절을 먼저 노출시킨 후 동결조직검사로 악성종양의 전이를 확진하였으며 경부구역 1~4까지 흉쇄유돌근, 척수부신경, 내경정맥을 보존하는 선택적 경부 절제술을 시행하였다. 안면신경의 하악변연 분지와 협부 분지사이의 유착된 이하선 전엽의 4×3 cm의 종괴를 메스로 박리 후 종괴를 포함하는 이하선 전절제를 완료하였다. 우려하였던 경상유양공 부위의 종괴는 안면신경 근위

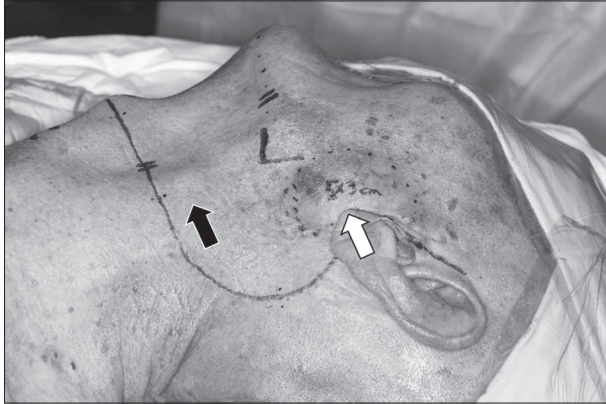


Fig. 1. Lateral photograph of incision design : 5×3 cm sized fixed mass on left preauricular area(white arrow) and 3 cm sized palpable solid mass at neck level II(black arrow).

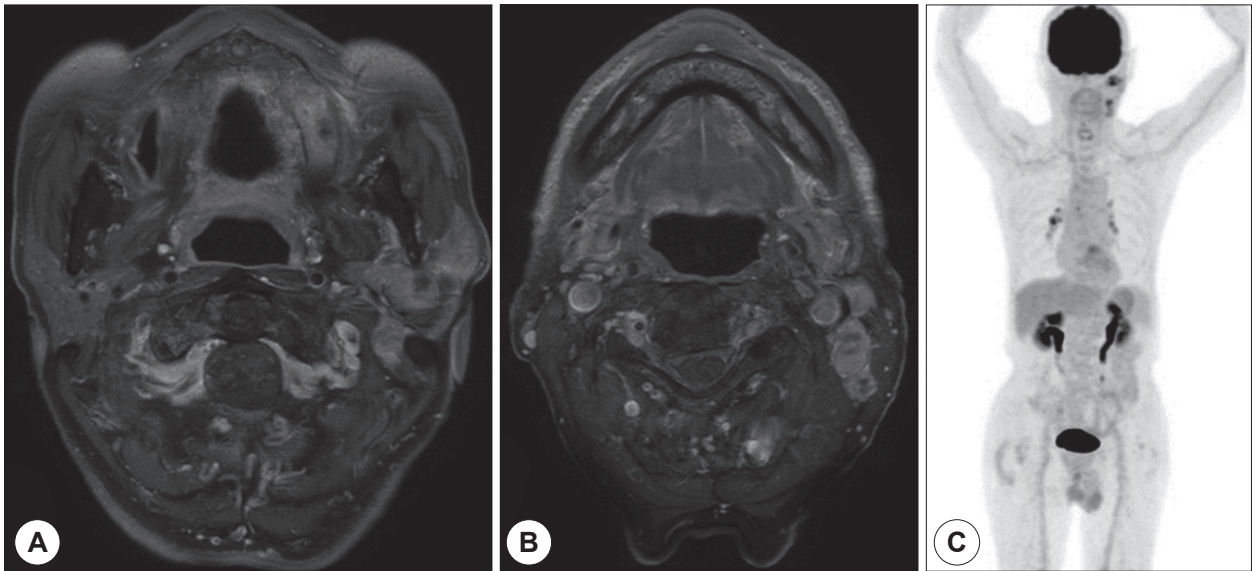


Fig. 2. A : Preoperative Gd enhanced T1-weighted MRI axial view reveals about 3 cm sized heterogenous mass in left parotid gland. B : Multiple metastatic lymph nodes in left neck level II. C : Preoperative PET CT scan shows hot uptake in left parotid, neck and no evidence of distant metastasis.

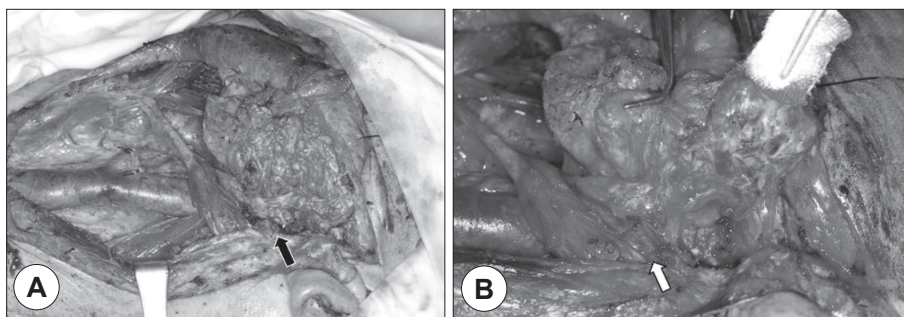


Fig. 3. A : Parotidectomy with selective neck dissection(Level I-IV) with facial nerve preservation(black arrow). B : Intraparotid lymph node was located near facial nerve trunk(white arrow).

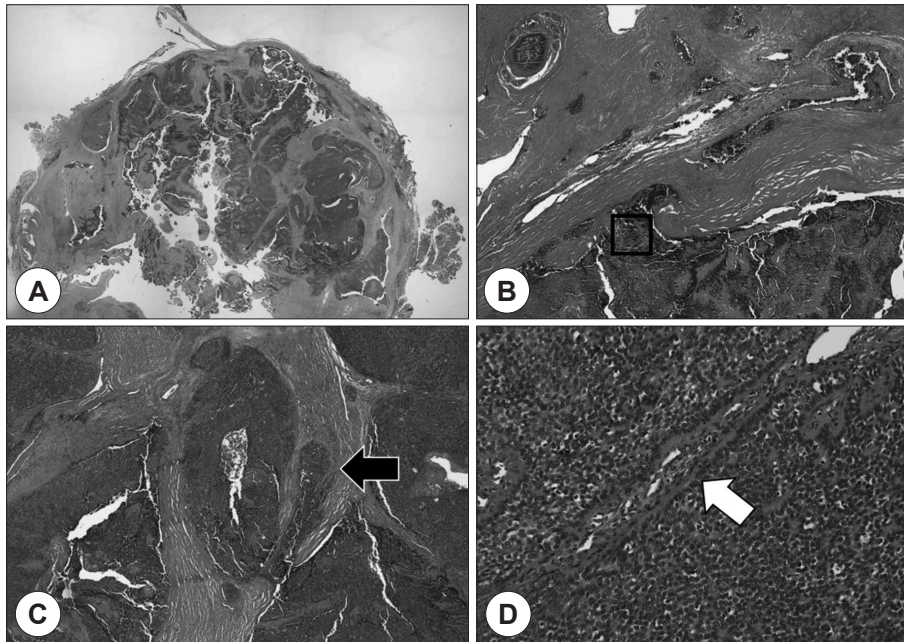


Fig. 4. Pathologic examination of the left parotid gland. There is an exophytic mass at superficial left parotid gland with focal cystic changes(A). At scan view, the mass is unencapsulated and has irregular margin(4B, H-E stain, $\times 40$). Higher magnification(specifically of a black box of figure B) shows that the tumor cell nests infiltrate into the adjacent soft tissue(C, H-E stain, $\times 40$, black arrow : infiltrative nests). The tumor cells are uniform, with small and dark nuclei and scanty cytoplasm(D, H-E stain, $\times 400$) and form solid nests separated by thick collagenous band(C, H-E stain, $\times 40$) with a palisaded appearance at periphery of the nest(D, H-E stain, $\times 400$, white arrow).

부와 비교적 쉽게 박리 가능한 이하선내 림프절이었다(Fig. 3).

병리조직 검사에서 종양은 2.7×2.5 cm 크기의 담갈색의 돌출형의 종괴로 일정한 탄성의 절제표면이 보이나 중심부에 국소적인 낭성 변화도 동반되었다. 종양의 경계는 불규칙하였고 절제연의 침범은 없었으나 일부 경계부위는 주변 조직과 인접한 소견이었다. 종양의 내부는 균일한 기저양 세포(basaloid cell)로 구성되어 있었으며 세포질이 희박하면서 작고, 타원형의 어두운 핵을 갖는 기저세포선암의 특징적인 모습이었다. 종양세포들은 서로 모여 고품의 종양 세포군을 이루고 두꺼운 교원질 간질에 의해 분리되어 있었다. 울타리처럼 배열된 종양세포가 주변부에서 쉽게 확인되었다. 종양의 침윤적인 경계 뿐만 아니라 국소적인 섬유양 과사가 보였으며 제거된 경부 임파절 19개중 7개에서 전이가 확인 되었다(Fig. 4).

수술 후 13일째 합병증 없이 퇴원하였으며, 수술 전 계획되었던 방사선 치료는 환자의 거부로 시행하지 못하고 정기적인 경과관찰 중이다.

고 찰

기저세포선암은 타액선에서 생기는 저등급 신생물로 그 원인이나 임상양상이 잘 알려져 있지 않다. 모든 타액선 종양의 1.6%, 타액선암의 2.9%에 해당하는 매우 드문 암종으로 100례 이하의 증례가 보고되어 있다. 50세에서 70세 사이에 호발하며 남녀간 발생빈도의 차이는 없다.^{1,2,6)} 이하선(90%) 및 악하선(10%)에서 가장 흔히 발생하며 소타액선에서는 매우 적게 발

생한다.⁴⁾ 기저세포선암은 타액선 WHO 분류에서 1991년부터 monomorphic adenoma에 대응되는 악성종양으로 기술되었다. 병리학적으로는 basal cell adenoma의 세포학적 특징을 가진 상피 신생물이지만 형태학적 성장이 악성에 해당하는 종물을 일컬으며 아직 종양의 기원은 정확히 알려져 있지 않다.⁵⁾ 종양의 기원에 관련하여 제기된 두 가지 가설 중 첫째는 Batsakis, et al. 에 의해 기술된 단형성 선종(monomorphic adenoma)으로부터의 악성변형(carcinoma ex. monomorphic adenoma)설이며³⁾ 둘째는 이 종양의 대부분이 새로 만들어진 조직(de novo origin)이라는 설이다. 본 증례에서는 이전 병리결과를 비교할 수 없었으나 절제술 이후 5년이상 지나서 서서히 커진 임상경과를 보아 단형성 선종으로부터의 악성변형 가설에 합당해 보인다.

기저세포선암은 국소적 침범을 주로 보이며 국소 림프절 전이율은 8% 원격전이율은 4%로 낮지만 국소재발율은 37%로 높다.⁷⁾ 본 증례 또한 국소림프절 전이를 동반한 국소재발 군이었다. 본 증례의 임상경과와 같이 대부분은 느린 성장을 하는 것으로 보인다. 가장 큰 종양은 4 cm이었고 안면마비나 침샘 외 침범을 보이는 경우는 매우 적다.⁸⁾ 대부분의 환자는 7~10년 이상 생존하며 발생부위에 따른 예후 차이는 없는 것으로 알려져 있다.²⁾ Muller와 Barnes는 46례 중 17례(37%)의 국소적 재발이 보이나 경부 임파절의 전이가 4례(8%), 폐와 피부로의 원격전이가 각각 1례(4%)로 드물어 예후는 비교적 좋은 것으로 보고하였다.⁴⁾

기저세포선암은 고품의 회갈색 종양으로 두 가지의 기저양

상피세포(basaloid epithelial cell)로 구성된다. 어두운 핵을 가진 작은 세포(dark cell)와 다각형 세포가 창백한 호염기성 핵과 호산성 및 양염색성 세포질을 가진 큰 세포(light cell)가 다양한 크기의 세포군을 형성하며 작은 세포가 울타리모양으로 주변부에 배열한다. 형태학적으로 막성형(membranous), 섬유주형(trabecular), 관상형(tubular), 고형(solid)의 4가지 조직아형으로 나뉘어진다.⁹⁾ 본 증례는 가장 흔한 고형 양상을 보였고 이 아형은 많은 저자들이 신경주변 침윤 및 혈관내 침윤의 증가를 보고한 바 있으나 이 소견과 예후의 중요성은 알려져 있지 않다. 또한 dermal cylindroma나 trichoepithelioma 등의 피부종양의 동반율이 10~14%로 알려져 있으나 이 또한 예후와의 연관성은 밝혀져 있지 않다.⁶⁾

감별 진단으로는 선양낭포암(adenoid cystic carcinoma), 소세포암(small cell carcinoma), 침윤성 피부 기저암(infiltrating cutaneous basal cell carcinoma)과 양성 기저세포 선종(benign basal cell adenoma) 등이 있다. 특히 고형 선양낭포암과 기저세포선암은 매우 비슷하다. 선양낭포암은 중심부 괴사나, 사상판의 성장 양상 및 더 균일한 과염색성 핵으로 감별될 수 있고 침윤성 피부 기저암은 임상병력으로 감별되나 소세포암은 신경내분비계 분화물인 neuron specific enolase와 신경접합단백질(synaptophysin)로 감별된다. 기저세포 선종과 가장 구별되는 점은 종양침윤세포가 종양중심부에서 주변 선조직 소엽으로 침윤하는 것이다.^{3,6)}

기저세포선암의 치료는 저등급 타액선암 분류에 따른다. 이 종양을 보고한 모든 저자는 광범위 국소 절제술을 권했다.^{4,6)} 국소 경부전이 치료는 명확한 임상적 림프절 병리 소견이 있을 때만 경부 절제술을 시행하였다. 원격전이가 있더라도 수술이 불가능하지는 않는 것으로 알려져 있다. Ellis, et al.은 폐 전이가 있는 환자가 폐엽 절제술 후 6년간 무병상태를 보고하였다.⁸⁾ 방사선 치료에 대한 종양의 감수성에 대하여는 정확히 알려져 있지 않아 제한적인 경우에 시행되고 있다.

저자들은 국소 재발된 기저세포선암의 경부전이소견을 보

인 환자를 안면신경 손상없이 이하선 및 경부절제술로 치료하였고 내원 이전 수술시의 조직검사를 확인할 수는 없었지만 재발된 종괴는 단형성 선종으로부터의 악성변형이 의심되며 국내에 재발 및 경부 전이의 증례가 없기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어 : 기저세포 선암 · 이하선 전 절제술.

References

- 1) Cuthbertson DW, Raol N, Hicks J, Green L, Parke R. *Minor Salivary Gland Basal Cell Adenocarcinoma. A Systematic Review and Report of a New Case. JAMA Otolaryngol Head Neck Surg. 2015;141(3):276-283.*
- 2) Batsakis JG, Brannon RB, Sciubba JJ. *Monomorphic adenomas of major salivary glands: A study of 96 tumors. Clin Otolaryngol. 1981;16:129.*
- 3) Ellis GL, Gnepp DR. *Unusual salivary gland tumors. In: Pathology of the head and neck, (ed Gnepp DR): New York, Churchill Livingstone; 1988. p.617-623.*
- 4) Muller S, Barnes L. *Basal cell adenocarcinoma of the salivary glands: Report of seven cases and review of the literature. Cancer. 1996;78(12):2471-2477.*
- 5) Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D, eds. *Pathology and genetics of tumors of the head and neck: World Health Organization Classification of Tumors. Vol 9. Lyon: IARC Press; 2005.*
- 6) Hirsch, Miles, Dierks. *BCAC of the Parotid Gland J Oral Maxillofac Surg; 2007.*
- 7) Luna MA, Batsakis JG, Tortoledo ME. *Carcinomas ex monomorphic adenoma of the salivary glands. J Laryngol Otol. 1989;103:756.*
- 8) Ellis GL, Wiscovitch JG. *Basal cell adenocarcinomas of the major salivary glands. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1990;69:461.*
- 9) Farrell T, Chang YL. *Basal cell adenocarcinoma of minor salivary glands. Arch Pathol Lab Med. 2007;131(10):1602-1604.*