

림프절 전이가 발생한 전이성 다형선종 1예

박성호 · 김남영 · 김경현 · 이국행 · 이병철 · 이명철 · 최익준⁺

한국원자력의학원 원자력병원 이비인후-두경부외과

A Case of Metastasizing Pleomorphic Adenoma Metastasized to Lymph Node

Sung Ho Park, MD, Nam Young Kim, MD, Kyoung Hun Kim, MD, Guk Haeng Lee, MD,
Byeong Cheol Lee, MD, Myung-Chul Lee, MD, Ik Joon Choi, MD⁺

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Korea Cancer Center Hospital,
Institute of Radiological and Medical Sciences, Seoul, Korea

= Abstract =

Pleomorphic adenoma is the most common benign neoplasm of salivary glands. Pleomorphic adenoma can metastasize without malignant transformation. Metastasizing pleomorphic adenoma is equal to pleomorphic adenoma histologically yet metastasize to distant sites.

Most Metastasizing pleomorphic adenoma are diagnosed many years following the initial treatment. 45-year-old man was found to have an asymptomatic right submandibular mass. A right submandibular gland excision and selective neck dissection was performed and pathology confirmed metastasizing pleomorphic adenoma. We report this case with a brief literature review.

Key Words : Metastasizing pleomorphic adenoma

서론

다형선종은 양성 타액성 종양중 가장 흔하다.¹⁾ 다형선종의 상피 조직 성분이 악성 변화를 거치는 경우 다형선종 유래암종이라 일컫고²⁾ 상피 조직성분과 지질이 함께 악성 변화를 거치면 암육종이라 일컫는다.³⁾ 이외에 드물게 악성변화를 하지 않지만 전이가 일어나는 경우 전이성 다형선종이라고 한다.⁴⁾ 전이성 다형선종은 악성 종양이지만 조직학적으로 다형선종과 구별이 되지 않지만 타장기로 전이되는 소견을 가진다. 전이성 다형선종에 대한 국내 보고는 현재까지 5예의 보고만 있고 전세계적으로 극히 드물어 병의 경과와 예후에 대해서 알려진

바가 매우 적다.⁵⁾

이에 저자들은 하악선에서 기원한 전이성 다형선종 1예를 경험하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

45세 남자 환자가 약 5년전에 발견한 우측 턱밑 부위의 무통성 종괴를 주소로 내원하였다. 치료 없이 지내다가 점차 커지는 양상을 보여 타원 방문 후 진료 의뢰되어 본원 외래로 내원하였다. 신체 검사상 우측 경부 level1b에서 가동성이 없고 딱딱한 2cm 크기의 경계가 명확한 종괴가 촉진되었다. 환자는 평소 건강하였고 27PYS의 흡연력 이외 과거력과 가족력, 사회력 모두 특이 소견은 없었다.

초음파하 세침흡인 생검상 다형선종으로 진단되었지만 세포의 양이 적고 다수의 RBC로 인해 판단이 어려워 총 생검을 추가로 실시하였다. 결핵균에 대한 중합효소

Received: July 26, 2016
Revised: October 25, 2016
Accepted: November 8, 2016

⁺Corresponding author: 최익준, 서울 노원구 노원로 75
한국원자력의학원 원자력병원 이비인후-두경부외과
Tel: (02) 970-1271 Fax: (02) 970-2450
E-mail: medica95@hanmail.net

연쇄 반응 검사상 음성이 나오고 총 생검 병리 결과상 다형선종으로 진단되었다. 구인두 전산화 단층촬영에서 우측 하악선에 장경 21mm크기의 종괴와 우측 하악선 주변 경부 림프절이 증대된 소견이 관찰되었다(Fig.1). 이에 우측 하악선에 발생한 다형선종 진단하에 우측 하악선 절제술 및 우측 level1b, 2 경부 림프절 청소술을 시행하였다. 수술 중 동결절편 검사를 실시하여 다형선종을 확인하였고 주변 림프절을 같이 제거 하였다. 이후 절제 변연부에서 동결절편 검사 실시하여 정상조직임을 확인하여 수술을 종료 하였다. 술 후 우측 하악선의 헤마톡실린-에오진염색(hematoxylin-eosin stain) 염색검사에서 다수의 다형선종이 발견되었고 경부림프절 1개에서 장경 11mm의 전이성 다형선종이 발견되었다(Fig.2). 환자는 술 후 안면신경 마비 및 합병증 없이 퇴원하였다.

이 후 추가치료 없이 경과관찰 하기로 하였다. 첫 수술 6개월 뒤 외래에서 추적관찰 중 시행한 경부초음파상에서 우측 하악선 피하 부위에 장경 8mm의 종괴 발견되어 세침흡인생검 시행하였다. 병리검사상 림프절에서 다형선종이 관찰되었다. 이에 구인두 전산화 단층촬영을 실시 하였고 초음파상에서 보였던 우측 피하 부위의 종괴 이외에는 특이소견을 보이지 않았다. 다형선종 발견 이후 즉시 재수술을 권하였으나 환자 개인사정상 당시에는 수술 불가능하여 전이성 다형선종의 재발 혹은 수술 후 남은 다형선종의 의심하에 첫 수술 후 9개월 뒤 우측 경부 level 1,2 림프절 청소술을 시행하였다. 술 후 조직검사상 초음파에서 보였던 종괴에서 다형선종이 관찰되었고 경부림프절에서는 다형선종이 발견되지 않았다. 수

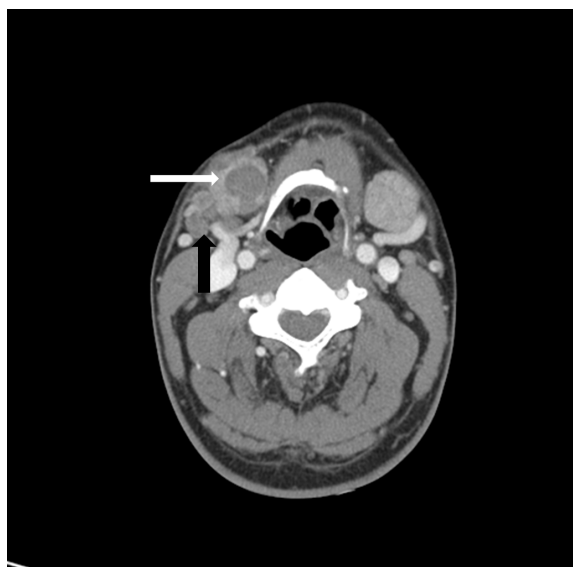


Fig. 1. Preoperative computed tomography neck image shows 21 x 18 x 16mm hypoechoic mass(white arrow) involving right submandibular gland and multiple 4-15mm lymph nodes(black arrow) in right submandibular space.

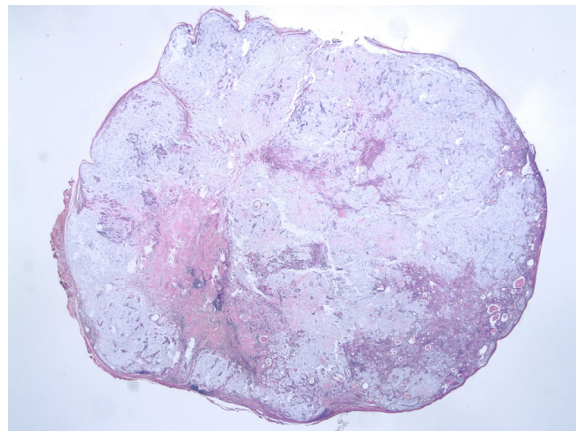


Fig. 2. Right level II Lymph node specimen shows most part of the lymph node replaced by the myxoid stromal component and duct like structure is transformed into pleomorphic adenoma (hematoxylin and eosin stain, x12).

술 후 안면신경 마비 및 합병증 없이 퇴원하였다. 원격전이 및 추가적인 병변 확인을 위해 첫 수술 10개월 후 양전자방출단층촬영 시행하였고 대사항진 소견을 보이는 곳은 없었다. 이후 정기적으로 외래 추적 관찰 중이다.

고찰

다형선종은 타액선종양 중 가장 흔한 질환으로 수술적 절제가 치료법으로 알려져 있다.^{4,6,7)} 주로 30세에서 50세에 발병하며⁸⁾ 무통성 종괴를 주소로 병원에 내원하여 진단되는 경우가 많다. 다형선종의 악성 변화시 3가지 형태를 가질 수 있다. 본 증례처럼 전이성 다형선종, 암육종, 다형선종 유래암종의 형태를 가진다. 이 중 전이성 다형선종과 암육종은 매우 드문 질환이다.⁹⁾

전이성 다형선종은 조직학적으로 양성 소견을 갖지만 전이를 하는 악성종양의 특징을 가지고 있다. 이러한 특징 때문에 질병의 명명법과 병의 분류에 논란이 있다.¹⁰⁾ 가장 최근의 WHO(World Health Organization)의 분류에 따르면 전이성 다형선종은 악성 표피성 종양으로 분류되어 있다. WHO에서는 전이성 다형선종을 “조직학적으로 양성 다형선종을 지니지만 설명불가능한 국소 혹은 원격전이를 일으킨다”라고 명시해 놓고 있다.¹¹⁾ 다형선종은 대부분인 70~80%정도가 이하선에서 발생하고 10%정도가 하악선에서 발생한다. 전이성 다형선종의 원발 부위도 이와 비슷한 비율을 보인다.¹²⁾

전이성 다형선종의 전이 방법은 아직 명확히 알려지지 않지만 수술 중 불완전한 절제로 인하여 종양세포가 혈행성 전이가 되었다는 가설이 가장 유력하게 제시되어 왔다.^{4,7,10)} 1942년부터 2014년 까지 영문으로 발표된 81개의 전이성 다형선종 증례를 고찰한 문헌에 의하면 22.2% 증례에서 간 혹은 폐로 전이 되었다는 것이 나타

나는데 이는 혈행성 전이를 뒷받침하고 있다. 하지만 이 문헌에 의하면 본 증례와 마찬가지로 20.1%의 증례에서 임파선으로 전이 되었다고 보고되었다.¹²⁾ 이는 임파선 전이를 뒷받침하는 결과이다. 또한 본 증례와 마찬가지로 수술을 시행하지 않은 증례에서 전이성 다형선종이 발견이 되기도 하는데 이는 수술 중 불완전한 절제로 인한 것이 전이성 다형선종이 발생의 유일한 방법이 아니라는 것을 뒷받침 해주고 있다.^{13,14)} 전이성 다형선종의 치료 원칙은 다형선종의 치료와 마찬가지로 완전한 수술적 제거이다. 다형선종의 치료로 종양 적출술은 국소재발의 원인이 되는 종양세포의 유출과 불완전 절제를 야기시킬 수 있기 때문에 지양해야 한다는 주장이 있다. 보고된 바에 따르면 종양 적출술의 20~45%, 부분 이하선 적출술 및 전체 이하선 적출술의 1~5%가 국소 재발을 일으킨다고 되어있다.¹⁵⁾ 전이성 다형선종의 경우 대부분의 증례에서 수술 후 발생했다는 점에서 다형선종의 초 치료로써 국소재발을 예방할 수 있는 부분 및 전체 타액선 적출술을 종양 적출술 보다 더 고려해야 한다는 주장을 뒷받침 하는 보고이다. 이에 본 증례에서는 종양의 완전 절제를 위하여 종양을 포함하여 악하선 절제술 및 경부임파선 청소술을 같이 시행하였다. 수술이 불가능한 경우 혹은 환자가 수술을 거부한 경우 항암 및 방사선 치료를 시도해 볼 수 있으나 효과에 있어서는 아직 증명된 바가 없다.^{16,17)}

전이성 다형선종의 예후는 아직 발표된 증례가 적고 다년간 경과관찰 하기가 힘들기 때문에 알기가 어렵다. 하지만 증례를 고찰한 문헌에 의하면¹²⁾ 여러 장소로 전이가 있는 것은 좋지 않은 예후를 시사하는 요소라고 보고 하고 있다. 3군데 이상 전이가 있는 13명 중에서 8명은 3년이내에 사망하고 5명은 수술 후 환자 재내원 하지 않아 수술 및 치료 후 예후가 보고가 되지 않았다. 본 증례에서는 원격전이가 보이지 않고 여러 장소로 전이가 없어서 추가 치료 없이 경과관찰 중이다.

본 증례는 이전에 발생한 전이성 다형선종으로 다른 전이성 다형선종과 달리 이전에 수술한 과거력이 없고 임파선으로 전이된 특징을 보였다. 조직학적으로 다형선종이 진단 되었더라도 악성으로 분류되어 있는 전이성 다형선종과 감별진단이 필요하고 이에 의심이 되는 주변 임파선에 대한 검사도 실시를 염두해야 할 것이다. 하악선에서 발생한 전이성 다형선종은 국내에서는 보고된 바가 없을 정도로 매우 드문 예로 알려져 있고 저자들은 45세 남자 환자에서 발생한 전이성 다형선종을 경험하여 치료 후 경과관찰 중 이기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어 : 침샘 · 다형선종 · 림프절전이

References

- 1) Som PM, Shugar JMA, Sacher M, Stoilman AL, Biller HF. *Benign and malignant parotid pleomorphic adenomas: CT and MRI studies. J Comput Assist Tomogr.* 1988;12:65-69.
- 2) S.A. Nouraei, M.S. Ferguson, P.M. Clarke, et al., *Metastasizing pleomorphic salivary adenoma, Arch. Otolaryngol. Head. Neck Surg.* 132 (2006) 788e793.
- 3) Batsakis JG. *Malignant mixed tumor. Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1982;91:342-343.
- 4) N.P. Steele, B.M. Wenig, R.B. Sessions. *A case of pleomorphic adenoma of the parotid gland metastasizing to a mediastinal lymph node, Am. J. Otolaryngol. Head. Neck Surg.* 28 (2007) 130e133.
- 5) Ki Ha Hwang, Hyun Soo Cho, Dong Hoon Kang, and Dongbin Ahn. *A Case of Metastasizing Pleomorphic Adenoma Recurred as Cervical Lymph Node Metastasis after Parotidectomy. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2015;58(2):134-7
- 6) M. Bhutta, L. Dunk, A. Molyneux, A. Tewary. *Parotid pleomorphic adenoma with solitary renal metastasis, Br. J. Oral Maxillofac. Surg.* 48 (2010) 61e63.
- 7) J.J. Hoorweg, F.J.M. Hilgers, R.B. Keus, F.A.N. Zoetmulder, B.M. Loftus. *Metastasizing pleomorphic adenoma: a report of three cases, Eur. J. Surg. Oncol.* 4 (1998) 452e455.
- 8) P.A. Bradley. *'Metastasizing pleomorphic salivary adenoma' should now be considered a low-grade malignancy with a lethal potential, Head. Neck Surg.* 13 (2005) 123e126.
- 9) P.L. Auclair, et al., *Sarcomas and sarcomatoid carcinomas of major salivary gland regions: a clinicopathological and immunohistochemical study of 67 cases and review of the literature, Cancer* 58 (1986) 1305e1315.
- 10) A.K. Abou-Foul, M. Madi, D. Bury, A. Merritt, *Metastasising pleomorphic salivary gland adenoma presenting as synchronous pulmonary and hepatic metastases, BMJ Case Rep.* (2014), <http://dx.doi.org/10.1136/bcr-2014-204351>. Published online.
- 11) D.R. Gnepp, *Tumors of the salivary glands: WHO classification of tumours, in: L. Barnes, J.W. Eveson, P. Reichart, et al. (Eds.), Pathology and genetics of head and neck tumours, vol. 9, IARC Press, 2005, p. 245.*
- 12) J. Knight, K. Ratnasingham, *International Journal of Surgery* 19 (2015) 137e145
- 13) T. Perrin. *Mixed tumor of the parotid with metastases, Arch. Pathol.* 33 (1942) 930e934.
- 14) Czader, et al., *Metastasizing mixed tumor of the parotid, Am. J. Surg. Pathol.* 24 (2000) 1159e1164.
- 15) E. Stennert, O. Guntinas-Lichius, J.P. Klussmann, et al., *Histopathology of pleomorphic adenoma in the parotid gland: a prospective unselected series of 100 cases, Laryngoscope* 111 (2001) 2195.

16) Cho YJ, Yang YS, Lee EJ, Hong KH. *A case of aggressive local recurrence of metastasizing pleomorphic adenoma with multiple lung metastases. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2010; 53(5):320-3.

17) Steele NP, Wenig BM, Sessions RB. *A case of pleomorphic adenoma of the parotid gland metastasizing to a mediastinal lymph node. Am J Otolaryngol* 2007;28(2):130-3.