

이하선에서 발생한 타액선관내 유두종 1예

김수진 · 이소정 · 김한수 · 정수연*

이화여자대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

A Case of Intraductal Papilloma arising in the Parotid Gland

Soo Jin Kim, MD, So Jeong Lee, MD, Han Su Kim, MD, PhD, Soo Yeon Jung, MD, PhD*

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Ewha Womans University, College of Medicine, Seoul, Korea

= Abstract =

Intraductal papilloma is an extremely rare benign tumor especially when it arises from major salivary gland. Recently, we experienced a case of an intraductal papilloma arising from the parotid gland in a 51-year-old woman. The radiologic finding showed lobulated enhancing and cystic solid mass in the left parotid superficial lobe. Superficial parotidectomy was performed. Pathological findings showed papillary proliferations with fibrovascular cores lined with bland cuboidal or columnar epithelial cells, and immunohistochemical stain results were consistent with intraductal papilloma. We report a case of intraductal papilloma in parotid gland with a review of literature.

Key Words : Intraductal papilloma, Parotid gland

서론

타액선 상피에서 기원하는 유두상의 양성종양에는 호산성과립세포종(oncocytoma), 와르틴 종양(Warthin's tumor), 유두낭샘종(papillary cystadenoma), 관유두종(ductal papilloma)이 있으나 와르틴종양을 제외하면 매우 드물게 발생한다.¹⁾ 이 중 관유두종은 조직병리학적으로 타액선관내 유두종(intraductal papilloma), 반전성 관내 유두종(inverted ductal papilloma), 유두상 타액선종(sialadenoma papilliferum)의 3가지 종류로 분류하고, 선관계(ductal system)의 어떤 상피에서든 발생할 수 있는 양성 유두종이지만 주로 유방에 발생하며 타액선에서는 발생 빈도가

매우 낮다.²⁾ 타액선에서는 입술(lip)에 가장 많이 발생하며, 이어서 구개(palate), 볼점막(buccal mucosa), 이하선, 악하선 순으로 발생이 보고되어 주타액선(major salivary gland)보다는 소타액선(minor salivary gland)에 발생하는 것으로 알려져 있다.^{1,3,4)} 타액선관내 유두종이 주타액선에서 발생하는 경우는 매우 드물며, 국내에서는 설하선에 발생한 증례 1예와 이하선에서 발생한 증례 2예가 보고된 바가 있다.⁵⁻⁷⁾ 저자들은 최근 이하선에서 발생한 관내유두종 1예를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례

51세 여자 환자가 5개월 전부터 좌측 이하선 부위에 생긴 무통성 종괴를 주소로 내원하였다. 종괴는 점차 커지는 양상을 보였고, 식사에 따른 크기의 변화는 없었다. 환자의 과거력 및 가족력에는 특이 사항이 없었다. 이학적 검사상 좌측 이하선 부위의 직경 2 cm 의 원형의 종괴가 관찰되었으며 종괴를 덮고 있는 피부의 발적이 관찰되었으나 주위 조직과의 유착 소견은 없었으며 안면신경

Received: April 11, 2019
Revised: May 2, 2019
Accepted: May 9, 2019

*Corresponding author: Soo Yeon Jung, MD, PhD
Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,
Ewha Womans University, School of Medicine, 1071
Anyangcheon-ro, Yangcheon-gu, Seoul 07985, Republic of Korea
Tel: +82-2-2650-5832, Fax: +82-2-2648-5604
E-mail: paransooyeon@hanmail.net

마비 징후는 관찰되지 않았다. 세침흡인생검에서 조직구 및 림프구, 변질된 적혈구(degenerated RBC) 소견을 보였으며 악성세포는 관찰되지 않았다. 경부 컴퓨터단층촬영 결과 좌측 이하선 천엽에 1.5 × 1.5 × 3.1 cm 크기의 종괴가 관찰되었다. 종괴의 윗부분은 조영 증강되었으나, 종괴의 아랫부분은 내부가 저음영, 주변부가 음영 증가되어 낭종을 시사하는 소견을 보였고, 장경 3.2 cm으로 소분엽화(lobulation) 소견을 보여 악성 종양의 감별이 필요하였다(Fig. 1). 경부 림프절 전이를 시사하는 소견은 없었다. 환자의 전산화단층촬영 결과 다형선종 추정

진단 하 전신마취 후 이하선 천엽절제술을 시행하였다.

변형 Blair 절개를 시행한 후 종양을 포함한 이하선 부분절제술을 시행하였다. 종양은 이하선 천엽에 위치하였으며 심측으로는 안면신경의 헝가지, 전측으로는 피부의 진피에 닿아 있었다. 수술 중 안면신경은 잘 보존되었으며 절제된 종양의 크기는 2.8×1.6 cm으로 국소 양성 변화를 포함하는 밝은 갈색의 결절이었다.

조직학적 검사 결과종양은 피막화되어 주변과 경계가 명확한 단일 낭종으로, 입방형 또는 원주형 상피세포로 피복된 섬유혈관핵의 지지를 받고 있는 유두상의 분지들

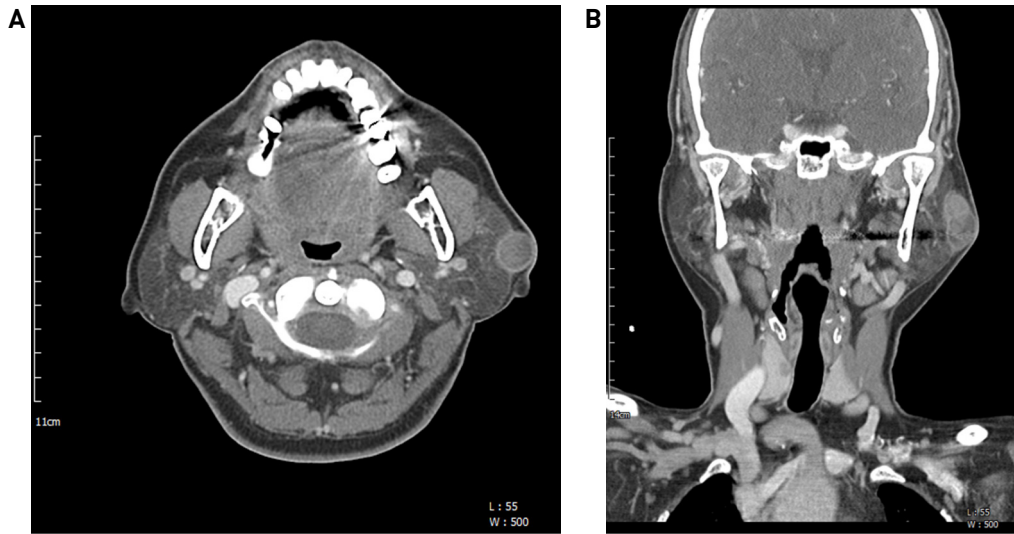


Fig. 1. Preoperative CT images. Lobulated, 1.5×1.5×3.1 cm-sized cystic mass which has enhancing solid portion was observed on axial (A) and coronal (B) CT images.

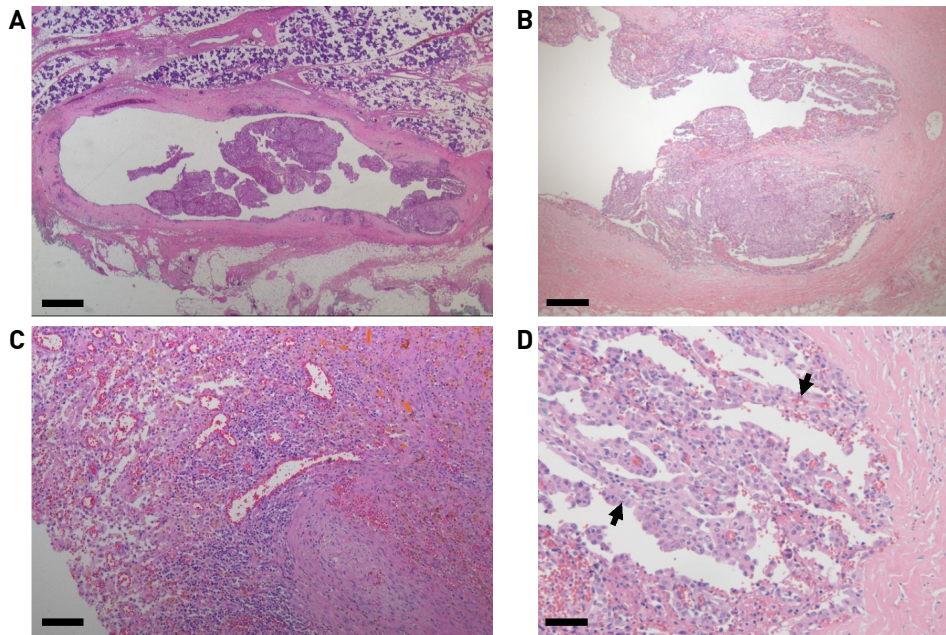


Fig. 2. Histopathologic findings. (A) Intraductal papilloma was noticed on scan view (The bar represents 1.5mm). Papillary proliferations with fibrovascular cores (B, ×40) (scale bar= 0.5mm), inflamed granulation tissue, old and recent hemorrhage, and foam cell collection (C, ×100) (scale bar= 200 μm), and bland cuboidal or columnar epithelial cells lining the fibrovascular cores (Black arrows) (D, ×200) (scale bar= 100 μm) was noticed. (H&E stain)

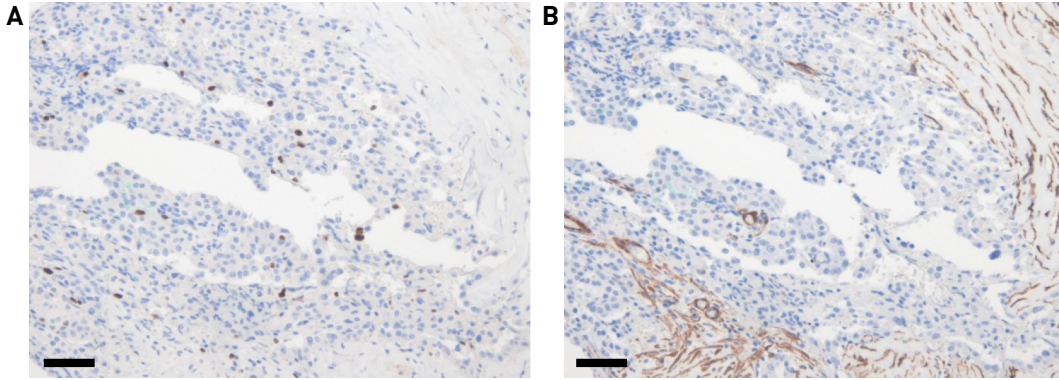


Fig. 3. Immunohistochemical findings. The immunohistochemical stain for Ki-67 shows focal positivity (less than 10% of total tumor cells)(A, ×200). Tumor cells were not stained with SMA (B, ×200)(scale bar= 100µm)

이 낭종의 내강을 향하여 돌출된 소견을 보였다. 핵의 비정형성이나 유사핵분열(mitotic figure)은 관찰되지 않았고 주변의 정상 이하선 조직으로의 침범은 관찰되지 않았다(Fig. 2). 면역조직화학염색 결과 p63, CEA, SMA (Smooth muscle actin)에 대해 음성반응, S100에 대해 양성 반응을 보여 종양은 내강과 접하고 있는 분비관 상피에서 유래했음을 시사하였고,⁸⁾ Ki-67에서 전체 종양 세포 중 10% 미만의 낮은 양성율을 보여 종양 세포의 증식 정도가 낮은 양성 종양임을 시사하였다(Fig. 3).⁹⁾ 이상의 종양의 위치, 조직병리학적 소견 및 면역조직화학염색 결과를 종합하여 최종적으로 타액선관내 유두종으로 진단하였다.

수술 후 1개월 간의 외래추적관찰 기간 동안 안면신경 마비나 이차 감염, 재발의 소견은 없었으며 지속적인 추적 관찰 예정이다.

고찰

타액선관내 유두종은 관유두종의 아형으로, 타액선의 분비관(excretory duct) 내에서 발생하고 유두상의 특징을 지니며 악성화의 경향이 없는 양성 샘종이다. 양성 타액선 종양 중에서도 상대적으로 발생률이 낮은 편으로, 주 타액선에서의 발생 빈도는 소타액선에서보다 더 드문 것으로 알려져 있다. 주 호발연령은 50대와 60대이고 소아에서는 드물게 발생하며 남녀 비는 1:1로 동일하다. 주로 수 주에서 수 년 전 발생한 침샘 부위에서의 무통성의 단일 종괴 또는 종창을 주소로 내원하며 0.5~1.0cm 정도의 크기로 주변 조직과의 유착을 보이지 않는다.¹⁰⁾

타액선관내 유두종은 수술적 절제를 통한 병리학적 검사 전에는 정확한 진단이 어렵다. 초음파는 도움이 될만한 정보를 제공하지 못하는 반면 컴퓨터단층촬영과 자기공명영상은 병변의 위치와 범위를 파악하는 데에 도움이 될

수 있으나 유두상 낭종의 병변으로 발견되는 와르틴종양, 유두낭샘종, 유두낭샘암종, 다형성 샘암종(polymorphous adenocarcinoma) 등과의 정확한 감별진단은 어렵다. 세침 흡인검사의 경우에도 전형적인 유두상 세포가 흡인되기 보다는 낭종 내 액체가 흡인되는 경우가 많아 진단에 유용한 방법은 아니다. 따라서 확진은 수술적 절제 후 종양의 조직병리학적 검사 및 면역조직화학염색 결과를 통해 이루어진다.^{3,11,12)}

타액선관내 유두종은 육안적으로 단일 낭성 결절 소견을 보이고 현미경적으로 내강에 미세 과립 조직과 점액질이 포함된 것을 관찰할 수 있다. 조직병리학적으로 종양은 피막화되어 있거나 주변과의 경계가 명확한 단일 낭종으로, 내강을 향하는 수많은 유두상의 분지가 내강을 부분적 또는 전체적으로 채우고 있는 양상이며, 유두상 분지의 상피는 한층 또는 두 층의 원주형 또는 입방형 상피 세포로 구성되어 있고 중심의 섬유혈관핵이 지지한다. 유두의 상피 세포들 사이에는 다양한 수의 술잔양의 점액 세포들이 위치해 있기도 한다. 낭종 내강의 피복 상피 역시 유두의 상피층과 동일한 세포들로 구성되어 있으며, 많은 예에서 낭종의 벽은 치밀한 섬유결합조직으로 둘러싸여 있다. 핵의 비정형성과 유사핵분열은 없다.^{10,12)}

면역조직화학염색 시, cytokeratin (CK), epithelial membrane antigen에 양성반응, S100에 부분 양성반응, SMA, p63 또는 CK14에는 음성반응이 나타나 타액선관내 유두종이 타액선 상피, 특히 분비관 상피에서 유래하는 종양임을 의미하며,^{2,4)} Ki-67에서 낮은 양성률을 보여 종양 세포의 증식 정도가 낮은 양성 종양으로 진단할 수 있다.^{4,9)}

확진을 위해 감별진단해야 할 양성 타액선 종양으로 유두낭샘종, 반전성 관내 유두종, 유두상 타액선종 등이 있고, 악성 타액선 종양으로는 선양낭성암종(adenoid cystic carcinoma), 타액관암종(salivary duct carcinoma), 다형성 샘암종 등이 있다. 유두낭샘종은 다양한 크기의 내강을

가진 다낭성 종양이라는 점에서, 반전성 관내 유두종은 피막이 없고 표피모양 세포 성분이 있어 주변조직을 밀고 성장하는 특징이 있다는 점에서 타액선관내 유두종과 구별되며, 유두상 타액선종은 인접한 점막면을 밀면서 바깥쪽으로 성장(exophytic growth)하는 특징이 있어 타액선관내 유두종과 구별된다. 선양낭성암종은 소타액선과 이하선에 호발하는 악성종양으로, 조직학적으로 사상형, 관상형, 고형의 형태를 보이고 신경 침범(perineural invasion)을 특징으로 하기 때문에 감별이 가능하고, 타액관 암종은 흔히 관내 상피 증식을 보이나 면포괴사(comedonecrosis), 전형적인 사상 가교 조직, 핵의 비정형성을 보여 감별진단이 가능하다. 다형성 샘암종은 전형적으로 소타액선에서 호발하고, 관상형(tubular pattern), 사상형(cribiform pattern), 잔기둥형(trabecular pattern), 고형(solid pattern) 혹은 표적모양(targetoid pattern)으로 주변 조직을 침습하는 양상을 보이는 특징이 있어 타액선관내 유두종과 감별이 가능하다.^{4,9,12)}

몇 증례에서 악성화 가능성에 관해 보고되었으나^{9,13)} 지금까지 보고된 대부분의 증례에서 수술적인 완전 절제 및 2~5년간의 추적관찰 시 재발 및 악성화 의심소견이 관찰되지 않아 예후가 좋은 양성 종양으로 생각된다.

본 증례의 경우, 수술 후 종양의 조직병리학적 검사 및 면역조직화학염색 결과 악성 종양의 소견이 관찰되지 않았으나, 수술 전 시행한 조영증강스캔에서 종양의 부분적인 조영 증강 및 소분엽화 소견으로 악성 종양의 감별이 필요했던 점, 수술 후 추적관찰 기간이 짧아 아직 재발 및 악성화의 가능성을 완전히 배제할 수 없다는 점에서, 지속적인 추적관찰이 필요할 것으로 생각된다.

References

1) Ellis GL, Auclair PL. *Ductal papilloma in Surgical Pathology of the Salivary Glands*. Philadelphia: W B Saunders Co; 1991.

p.238-252.

2) Sun S, Wang P, Wang Y, Su W, Wang F, Yang H. *Intraductal papilloma arising from the accessory parotid gland: A case report and literature review*. *Medicine (Baltimore)*. 2018;97:e10761.

3) Soofer SB, Tabbara S. *Intraductal papilloma of the salivary gland. A report of two cases with diagnosis by fine needle aspiration biopsy*. *Acta Cytol*. 1999;43:1142-1146.

4) Brannon RB, Sciubba JJ, Giulani M. *Ductal papillomas of salivary gland origin: A report of 19 cases and a review of the literature*. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2001;92:68-77.

5) Choi G, Choi CS, Choi JS, Choi JO. *Intraductal papilloma of the parotid gland in a child*. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2001;125:280.

6) Sung M-W, Lee K-J, Roh J-L, Ryu S-H. *Intraductal Papilloma Arising in the Sublingual Salivary Gland*. *Korean J Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery*. 2002;51:99-101.

7) Kang J-M, Choi J-Y, Kang B-S, Yoo Y-H. *A Case of Intraductal Papilloma in the Parotid Gland*. *Korean J Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery*. 2008;51:99-101.

8) Aikawa T, Kishino M, Masuda T, Isomura ET, Tanaka S, Namikawa M, et al. *Intraductal papilloma arising from sublingual minor salivary gland: case report and immunohistochemical study*. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2009;107:e34-37.

9) Nagao T, Sugano I, Matsuzaki O, Hara H, Kondo Y, Nagao K. *Intraductal papillary tumors of the major salivary glands: case reports of benign and malignant variants*. *Arch Pathol Lab Med*. 2000;124:291-295.

10) Brannon RB, Sciubba JJ. *Ductal Papillomas in World Health Organization classification of tumours: pathology and genetics of head and neck tumours*. . Lyon: IARC; 2005. p.270-272.

11) Mirza S, Dutt SN, Irving RM, Jones EL. *Intraductal papilloma of the submandibular gland*. *J Laryngol Otol*. 2000;114:481-483.

12) Kroghdahl AS, Svane-Knudsen V. *Intraductal papilloma of the parotid gland in a child*. *Histopathology*. 2002;41:83-85.

13) Shiotani A, Kawaura M, Tanaka Y, Fukuda H, Kanzaki J. *Papillary adenocarcinoma possibly arising from an intraductal papilloma of the parotid gland*. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec*. 1994;56:112-115.