

## 마스크 끈자국을 따라 재발한 이하선 점액표피양암종 1예

황보창호 · 유재호 · 김정규 · 이동원

대구가톨릭대학교 의과대학 이비인후과교실

### A Case of Parotid Mucoepidermoid Carcinoma Recurring along the Mask Strap Line

Chang Ho Whangbo, MD, Jae Ho Yoo, MD, Jeong Kyu Kim, PhD, Dong Won Lee, PhD

Department of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery,  
Daegu Catholic University School of Medicine, Daegu, Korea

#### = Abstract =

Mucoepidermoid carcinoma is one of the most common malignant tumors that occur in the salivary glands. While several cases of distant metastasis have been reported, instances of metastasis to the skin are rare. We present the case of a 72-year-old man diagnosed with parotid mucoepidermoid carcinoma who experienced temporary remission following surgical resection and adjuvant chemoradiotherapy. However, the carcinoma recurred along the skin at the periauricular area along the mask line. Given the current prevalence of COVID-19, the practice of wearing masks has become more widespread. This case report highlights the recurrence of mucoepidermoid carcinoma along the mask strap line, emphasizing the importance of distinguishing it from benign dermatological conditions.

**Key Words :** Parotid neoplasms · Mucoepidermoid tumor · Skin neoplasms · Masks

## 서론

점액표피양암종(Mucoepidermoid carcinoma)은 침샘에서 가장 흔히 발생하는 악성 종양으로 침샘 종양의 약 3% ~ 9%를 차지한다.<sup>1)</sup> 점액표피양암종은 종양 세포가 단단(Solid)해질수록, 신경 및 다른 조직으로 침습적일수록, 표피양세포(Epidermoid cell)의 비율이 상대적으로 높을수록 고등급의 종양으로 분류된다.<sup>2)</sup> 종양의 등급이 고등급으로 갈수록 원격전이가 자주 일어나며,<sup>3)</sup> 대표적인 전이 부위로는 골수, 폐, 뇌, 근육 등이 있고, 피부로의

전이도 아주 드물게 발생한다고 알려져 있다.<sup>4)</sup>

2019년 12월 중국에서 처음 COVID-19 감염병이 보고된 이후, COVID-19 바이러스는 전 세계로 전파되어 팬데믹 현상을 일으켰다. 백신이 개발되기 이전까지 COVID-19 감염을 예방하기 위해 마스크 착용이 필수화 되었으며, 오랜 시간 마스크 착용으로 인한 접촉성 피부염(Contact dermatitis)과 같은 양성 피부병변 발생이 증가하였다.<sup>5)</sup>

본 증례의 저자들은 코로나 사태로 인한 마스크 착용이 늘어남으로써, 단순 마스크 착용에 의한 양성 피부병변과 감별이 필요한 이하선 점액표피양암종의 피부 침범 사례 1례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

Received: October 26, 2023

Revised: December 10, 2023

Accepted: December 21, 2023

+Corresponding author: Dong Won Lee, PhD

Department of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery,

School of Medicine, Daegu Catholic University 33

Duryugongwon-ro 17-gil, Nam-gu, Daegu 42472, Korea

Tel: +82-53-650-4525, Fax: +82-53-650-4533

E-mail: neck@cu.ac.kr

## 증례

72세 남성 환자로 1달 전 발생한 좌측 이하선 부위의 통증 및 압통을 주소로 내원하였으며 1차의원에서 비스

테로이드성 소염진통제를 포함한 경구 약을 복용하여도 증상 호전이 없어 본원 외래로 내원하였다. 과거력상 고혈압, 당뇨, 척추협착증이 있었으며 예방적으로 Aspirin 을 복용하고 있었다. 시진상 전이개부 및 이하선 부분의 피부를 따라 전반적인 발적(skin redness) 및 붓기가 있었으며(Fig. 1), 1주일 간 항생제 및 소염제 복용 후 피부 발적은 호전되었다. 외래에서 시행한 해당부위의 초음파 검사 상 좌측 이하선 하방에 표면이 불규칙한, 저에코성 16 × 18mm의 덩이가 있어 초음파유도하 세침흡인검사를 실시하였다(Fig. 2A). 세침흡인검사 상 해당 덩이는 악성으로 진단되어, 경부 CT, MRI 및 PET-CT 검사를 실시하였다. 경부 CT 상에서 좌측 이하선에 약 2cm 크기의 불균질하게 조영증강되는, 주변 조직과의 경계가 불분명한 덩이가 관찰되었고 (Fig. 2B), 경부 MRI 상에서는



Fig. 1. Skin redness and swelling along the parotid region.

T1 조영증강에서는 저신호, T2 조영증강에서는 고신호 및 T1 조영증강에서는 조영제 섭취가 잘 되는 이하선의 종괴가 CT 소견과 비슷하게 관찰되었다. PET-CT결과 원격전이는 발견되지 않았으며, 원발부위 외에 좌측 Level 1에 FDG 섭취가 발견되어 추가적으로 좌측 이하선 하방 종물에 중심침생검검사 및 좌측 Level 1에서 발견된 저에코성 8 × 7mm의 임파선에 세침흡인검사를 실시하였다. 이하선 종물 병리소견 상에서 CK7 양성, CK20 음성 소견을 보이는 점액표피양암종 의심소견이 나왔으며, 좌측 level 1 세침흡인검사에서는 전이성 암종이 나왔다. 경부 림프절 전이를 동반한 좌측 이하선의 원발성 암종 의심하에 전신마취 하 이하선 절제술 및 경부곽청술을 실시하였다. 수술 시 이하선 부위의 피관(flap)을 들어올릴 때 암종의 피관 침범을 의심할 만한 육안적 소견은 관찰되지 않았다. 종괴는 이하선 천엽의 딱딱한 덩이로 목빗근의 일부를 침범하고 있었다. 수술 시 안면신경 주 줄기는 보존하였으며 좌측 이하선 천엽과 함께 좌측 Level I~V의 경부 림프절과 목빗근을 같이 절제하였다.

이하선 종물의 병리검사 상 조직 일부에서 주변 조직 및 림프관으로의 침윤이 확인되었고(Figs. 3A, 3B), 고배율 시야에서 종괴를 살펴보았을 때 종괴는 주로 중간세포(intermediate cell)로 이루어져 있었으며 세포의 유사분열(mitosis)이 다량 확인되었다(Fig. 3C). 면역화학조직검사에서 Ki-67, CK7, P63에서 양성반응이 나왔고, S-100 검사와 P40 검사에서는 반응을 보이지 않았다. 좌측 Level I~V림프절들은 모두 림프절 전이가 확인되었으며, 가장 큰 림프절의 직경은 약 1.3cm로 측정되었다. 이하선

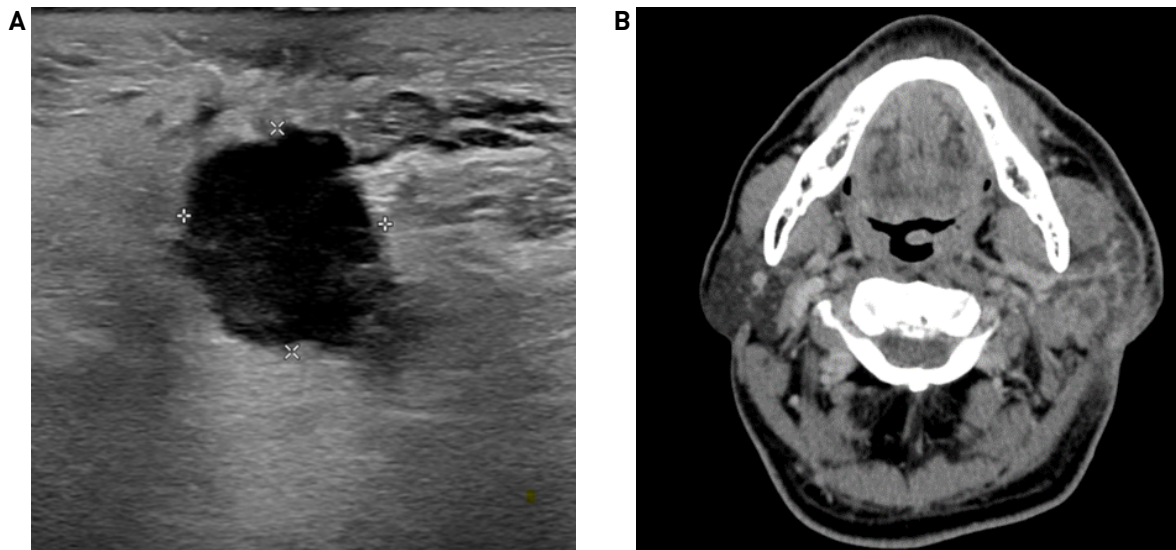
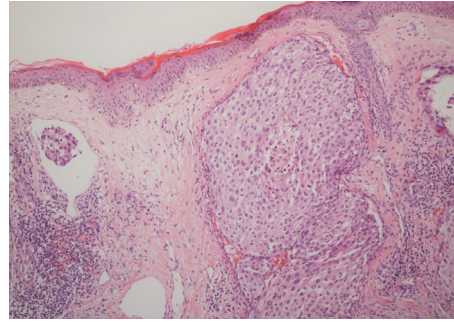


Fig. 2. Ultrasonography and computed tomography imaging of primary mucoepidermoid carcinoma. (A) Ultrasonography shows 2 × 2.5cm sized hypoechoic mass with irregular margin on left parotid. (B) CT imaging shows about 2 cm-sized inhomogeneous enhancing mass with irregular margin at left parotid gland inferior portion (arrow).

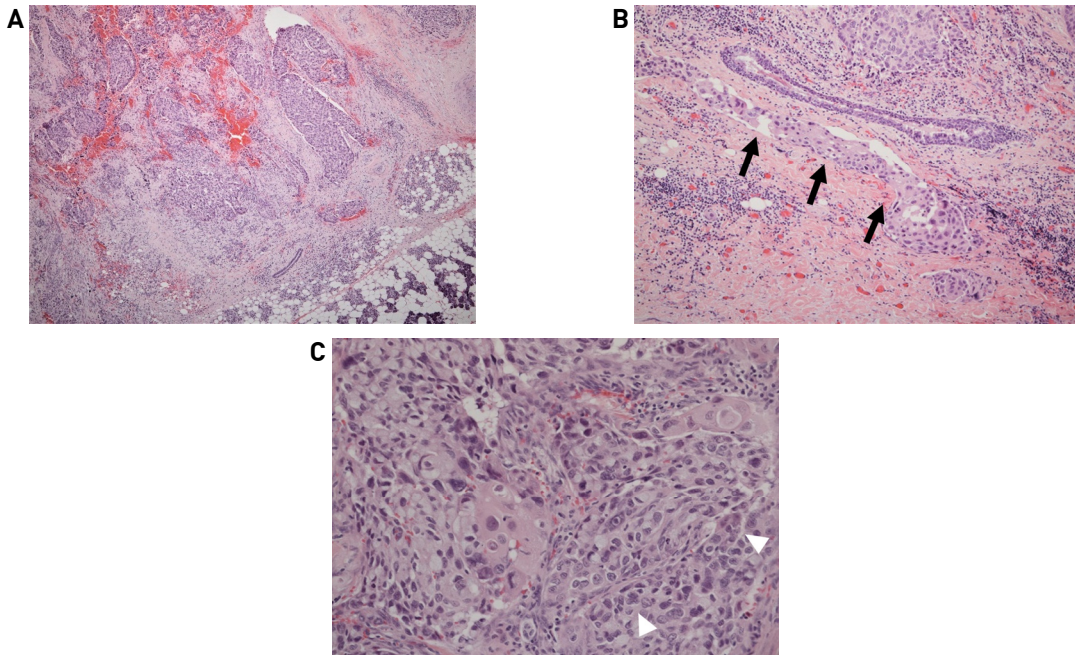
과 경부 림프절의 조직학적 소견을 검토하였을 때 이하선의 고등급 점액표피양암종 및 경부 림프절 전이로 진단할 수 있었고, 이하선 종양의 실질 외 침범 및 림프관 침범이 확인되어 수술 후 Cisplatin을 이용한 항암치료 및 66Gy의 방사선치료를 동시에 실시하였다.

수술 및 항암방사선치료 8개월 이후 추적관찰 결과 초음파 및 단층촬영검사상 이하선 부위 종괴 및 재발 소견은 보이지 않았으나, 마스크 끈이 위치하고 있는 좌측 이개의 위쪽과 뒤쪽부위에 국소적인 피부의 결절성 홍반(erythematous nodule)소견이 있어 접촉성 피부염 및 암의 국소재발 등을 감별하기위해 피부과로 의뢰되었다(Figs. 4A, 4B). 피부과에서 시행한 해당부위의 조직검사 상 이하선의 종양에서부터 유래한 전이성 점액표피양암종으로

진단되었다(Fig. 5). 해당 피부 부위의 암종에 대해 방사선치료를 45Gy, 15 fx로 진행 후 Cisplatin, Doxorubicin 및



**Fig. 5.** Recurred mucoepidermoid carcinoma to the skin, showing similar pathologic morphology to the primary carcinoma.



**Fig. 3.** Histopathologic findings in primary parotid mucoepidermoid carcinoma. (A) Primary mucoepidermoid carcinoma in parotid gland, showing mainly intermediate cells with extensive infiltrative margin. (H&E, ×50). (B) Primary mucoepidermoid carcinoma in parotid with lymphatic invasion (arrows). (H&E, ×100). (C) Tissues predominantly composed of intermediate cells with greater mitotic activity and cytologic atypia (arrowheads). (H&E, ×200)



**Fig. 4.** Left periauricular skin lesion that appeared after the initial treatment.

Cyclophosphamide 병합 항암치료를 총 6차례 걸쳐 투여하며 입원 치료하였고, 치료 후 약 1년간 재발 없이 외래 추적관찰 중이다.

## 고찰

점액표피양암종은 이하선에서 가장 흔하게 발생하는 악성종양으로 1945년 Stewart에 의해 처음으로 보고되었다.<sup>6)</sup> Stewart는 침샘의 종양조직에서 표피(Epidermoid)세포, 중층(intermediate)세포와 점액분비(Mucus-producing)세포가 서로 섞여 존재하는 조직학적인 특징을 가진 암종을 발견하였고, 이를 바탕으로 점액표피양(Mucoepidermoid)이라는 용어를 처음으로 소개하였다.

일반적으로 암종의 조직 내에 표피세포의 비율이 높아 질수록 고등급의 암종으로 분류되며 비정형성의 세포, 조직의 괴사와 종양의 신경주위침범이 더 자주 관찰된다고 알려져 있다.<sup>7,8)</sup> 또한 고등급의 암종일수록 경부 림프절 및 원격전이의 가능성이 더 높아지며, 골수, 폐, 간, 피부 등의 다른 장기로의 원격 전이가 발생하게 된다.<sup>9,10)</sup>

피부에 이환된 암종의 양상은 피부원발암이나 봉와직염 등과 비슷할 수 있다.<sup>11)</sup> 피부에 전이된 암종은 사진상 홍반(erythematous patch), 모세혈관확장증(telangiectatic lesion), 반(plaque), 결절(nodule), 궤양성 병변 등 다양한 피부병변으로 발견되어 필요시 조직검사 등으로 감별이 요구된다. 본 증례에서는 초진시 이하선 부위에 발적이 동반되었으나 항생제 및 소염제 복용 1주일 뒤에 발적이 호전되었으며, PET상에서도 피부에 전이소견이 발견되지 않았고, 수술 및 항암방사선 치료 후 8개월 뒤 마스크 끈을 따라 홍반 소견을 보인 점, 원발 암종과 같은 병리 소견을 고려해보았을 때 지역재발(local recurrence)로 보는 것이 합당한 것으로 사료된다. 하지만 초진 시 피부 발적 소견은 이미 원발암이 피부로 침범했거나 전이되었음을 의심해볼 수도 있는 소견이다. 또한 마스크 끈자국을 따라 병변이 발생한 점을 고려해 보았을 때 마스크 끈에 의한 물리적 자극이 위치상 이개 전면 및 후면을 따라 암종이 발생하게 한 악화요인일 수 있을 것으로 사료된다.

침샘에서 발생한 점액표피양암종의 피부 전이는 매우 드물게 보고되고 있다. 이하선에서의 피부전이 3례,<sup>12-14)</sup> 혀의 소타액선(minor salivary gland)에서의 피부전이 1례가 각각 보고되었다.<sup>15)</sup> 본 증례를 포함하여, 전이된 피부에는 주위 피부의 발적을 동반한 결절성 홍반(erythematous nodule)이 관찰되었으며 일부 증례에는 궤양 역시 동반되었다. 암종의 조직학적 특성을 살펴보았을 때, 피부

전이 암종은 모두 원발성 암종과 조직학적 유사성을 가지고 있었으며, 원발성 암종은 모두 혈관림프조직 또는 신경조직의 침범이 있는 고등급의 점액표피양암종이었다.

점액표피양암종의 피부 전이에 대한 치료는 아직 정립되지 않았다. 궤양 등에 의해 발생하는 피부 증상의 경감을 위하여 Moh's microsurgery를 통한 절제를 시도할 수 있다.<sup>12)</sup> 또한 전이성 종양의 완전 관해를 기대하기 위해서는 원발성 점액표피양암종의 치료에 바탕을 둔 항암방사선치료가 필요할 것이다.<sup>15)</sup>

이하선 암종의 피부 전이 또는 재발을 예방하기 위해서는 암종을 완전히 절제하는 것이 가장 중요하다. 암종이 주변 조직 특히 피부와 가까이 위치한 경우 피부층으로 침범이 있는지 확인해야 하며, 피관 거상시 주의해야 한다. 또한 충분한 수술 마진을 확보하여 잔여 암세포를 남기지 않는 것이 중요하다.

2020년 전세계적으로 COVID-19 바이러스의 세계적 유행이 발생하면서, 마스크를 착용하고 다니는 비율이 높아졌다. 마스크 착용이 마스크의 줄이 씌워지는 이개 근처뿐만 아니라, 볼과 광대, 턱 등 전반적인 두경부 부위를 모두 가리므로 해당 부위의 피부 증상들을 진찰하였을 때 접촉성 피부염, 아토피성 피부염 등의 단순 양성질환만을 생각할 수 있다. 하지만, 본 증례에서처럼 드물지만 두경부 악성 종양의 피부 전이의 가능성이 있으므로, 신체진찰 시 마스크를 제거한 후 면밀한 시진을 하는 것이 중요하다. 만약 해당 부위의 발적 또는 결절 등의 피부 증상이 발생하였을 경우 단순 양성 피부질환 뿐만 아니라 두경부 영역 악성 종양의 피부 전이를 배제하기 위해 필요시 조직검사 및 피부과 협진을 염두해 두어야 할 것으로 생각된다.

## Acknowledgement

This study was approved by the Institutional Review Board (IRB) of Daegu Catholic University Hospital (IRB No: CR-23-145).

## References

- 1) Gray JM, Hendrix RC, French AJ. *Mucoepidermoid tumors of salivary glands. Cancer. 1963;16:183-194.*
- 2) Seethala RR, Altmani A, Ferris RL, Fonseca I, Gnepp DR, Ha P, et al. *Data set for the reporting of carcinomas of the major salivary glands: Explanations and recommendations of the guidelines from the international collaboration on cancer reporting. Arch Pathol Lab Med. 2019;143:578-586.*

- 3) Spiro RH, Huvos AG, Berk R, Strong EW. *Mucoepidermoid carcinoma of salivary gland origin. Am J Surg.* 1978;136:461-468.
- 4) Prabhu V, Johnston J, Ingrams D, Passant C. *Mucoepidermoid carcinoma - unknown primary and late distant metastasis: an unusual course of the disease. Clin Pract.* 2011;1:e97.
- 5) Lim YS, Justin YWY. *Facial dermatoses induced by face masks: A systematic review and meta-analysis of observational studies. Contact Dermatitis.* 2022;87:473-484.
- 6) Stewart FW, Foote FW, Becker WF. *Muco-epidermoid tumors of salivary glands. Ann Surg.* 1945;122:820-844.
- 7) Plambeck K, Friedrich RE, Schmelzle R. *Mucoepidermoid carcinoma of salivary gland origin: classification, clinical-pathological correlation, treatment results and long-term follow-up in 55 patients. J Craniomaxillofac Surg.* 1996;24:133-139.
- 8) Singareddy R, Bajwa HK, Reddy MM, Alluri KR, Raju KVVN, Rao TS, et al. *Mucoepidermoid carcinoma of the salivary gland: Long term outcomes from a tertiary cancer center in India. Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2022;74(Suppl 2): 1763-1767.
- 9) Goode RK, Auclair PL, Ellis GL. *Mucoepidermoid carcinoma of the major salivary glands: clinical and histopathologic analysis of 234 cases with evaluation of grading criteria. Cancer.* 1998;82:1217-1224.
- 10) Hicks MJ, el-Naggar AK, Flaitz CM, Luna MA, Batsakis JG. *Histocytologic grading of mucoepidermoid carcinoma of major salivary glands in prognosis and survival: a clinicopathologic and flow cytometric investigation. Head Neck.* 1995;17:89-95.
- 11) Aygit AC, Top H, Cakir B, Yalcin O. *Salivary duct carcinoma of the parotid gland metastasizing to the skin: A case report and review of the literature. Am J Dermatopathol.* 2005;27:48-50.
- 12) Yen A, Sanchez RL, Fearnough P, Tschen J, Wagner RF, Jr. *Mucoepidermoid carcinoma with cutaneous presentation. J Am Acad Dermatol.* 1997;37(2 Pt 2):340-342.
- 13) Abbas O, Reddy K, Demierre MF, Blanchard RA, Mahalingam M. *Epidermotropic metastatic mucoepidermoid carcinoma. Am J Dermatopathol.* 2010;32:505-508.
- 14) Locati LD, Quattrone P, Pizzi N, Fior A, Cantù G, Licitra L. *Primary high-grade mucoepidermoid carcinoma of the minor salivary glands with cutaneous metastases at diagnosis. Oral Oncol.* 2002;38:401-404.
- 15) Smoller BR, Narurkar V. *Mucoepidermoid carcinoma metastatic to the skin. An histologic mimic of a primary sweat gland carcinoma. J Dermatol Surg Oncol.* 1992;18:365-368.