

전이성 다형성 선종 1예

계명대학교 의과대학 이비인후과학교실

조유미 · 이준엽 · 구민본 · 여창기

Metastasizing Pleomorphic Adenoma : Report of a Case

Yu Mi Cho, MD, Jun Yeop Lee, MD, Min Bon Koo, MD and Chang Ki Yeo, MD

Department of Otolaryngology, Keimyung University School of Medicine, Daegu, Korea

ABSTRACT

Benign metastasizing pleomorphic adenoma is an extremely rare neoplasm, although the pleomorphic adenoma is the most common neoplasm affecting the salivary glands. Metastasis commonly develops many years after the excision of the primary tumor and is usually preceded by local recurrences. This is a case of pleomorphic adenoma in the parotid gland without a local recurrence. We describe a case of metastasizing pleomorphic adenoma in a 69 year-old woman. The literature concerning the subject is reviewed. The treatment of choice for the metastatic pleomorphic adenoma appears to be complete surgical excision. (Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2007;50:707-9)

KEY WORDS : Pleomorphic adenoma · Metastasis.

서 론

다형성 선종은 타액선에서 발생하는 양성 종양 중 가장 빈도가 높은 종양으로 주로 이하선과 악하선에서 발생하며 약 10% 정도만 소타액선에서 발생하는 것으로 알려져 있다.¹⁾ 이 종양은 병리 조직학적으로 양성 종양이지만 종양의 표면에 위축을 형성하여 수술 시 불완전 절제가 되기 쉽고, 재발률이 높아 치료에 어려움이 많다.²⁾ 치료는 다른 양성 종물들의 경우와 마찬가지로 피막을 포함한 완전한 외과적 절제이며 일반적으로 불완전한 절제 이후 약 20~45%에서 재발이 관찰되고, 악성 전환은 2~9%에서 관찰된다.³⁻⁵⁾ 다형성 선종의 악성 형태인 악성 혼합종에는 다형선종유래 암종, 암육종, 전이성 다형성 선종이 있다.⁶⁾ 그 중 조직학적으로는 양성이나 전이가 발생하는 전이성 다형성 선종은 극히 드물다.⁵⁻⁷⁾ 이에 저자는 이하선에 발생한 다형성 선종의 완전 절제 22년 후 국소 재발 없이 경부로 전이된 전이성 다형성 선종 1예를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

논문접수일 : 2006년 10월 20일 / 심사완료일 : 2007년 2월 26일
교신저자 : 여창기, 700-712 대구광역시 중구 동산동 194
계명대학교 의과대학 이비인후과학교실
전화 : (053) 250-7711 · 전송 : (053) 256-0325
E-mail : ckyeo@dsmc.or.kr

증 례

69세 여자 환자가 약 3년 전부터 좌측 경부 세 군데에 촉진되는 종물들을 주소로 2006년 7월 본원 이비인후과에 내원하였다. 환자는 과거력상 내원 22년 전 본원에서 좌측 이하선 다형성 선종으로 이하선 전엽 절제술을 시행 받았고 (Fig. 1), 가족력에서 특이소견이 없었으며 신체검사에서 좌측 경부 level II, III, IV에 각각 약 1×1 cm, 1×1 cm, 0.5×0.5 cm 크기의 무통성이며 부드러운 종괴가 촉진되었고 그 외 특이 소견이 없었다.

임상 검사 소견상 혈액, 뇨, 간 기능 및 신 기능 검사, 심전도 검사 등은 정상이었다. 경부 전산화단층촬영에서 좌측 이하선에는 종괴가 없었으며 좌측 경부 Level II, III, IV에 각각 강하게 조영되는 등근 표재성 결절들이 관찰되었다 (Fig. 2). 세침 흡인 세포 검사상 좌측 경부 다형성 선종으로 확인되었다. 과거 수술 받은 좌측 이하선 부위에 세침 흡인 검사를 시행하여 원발 부위에 국소 재발이 없음을 확인하였다. 2006년 9월 전신 마취하에 좌측 경부 종양 절제술을 시행하였다. 각각 크기가 1 cm 정도 되는 세 개의 등근 종괴들로 대 이개 신경(Greater Auricular Nerve)과 유착되어 있었으며 비교적 피막이 잘 형성되어 있어서 피막이 손상되지 않도록 주의하면서 종괴를 완전히 제거하였고

절개 부위는 단순 봉합술을 시행하였다(Fig. 3). 적출된 종양은 각각 다수의 소엽으로 구성되어 있었으며 회색의 매끄러운 소견을 보였다. 병리 조직학적 검사에서 종양의 외부 표면은 불규칙하지만 섬유성 피막으로 둘러싸여 경계가 명확

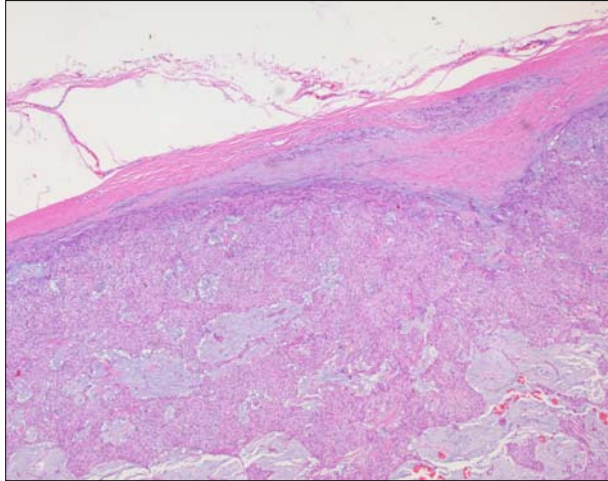


Fig. 1. Pathologic finding of the parotid is compatible with benign pleomorphic adenoma showing benign epithelial cells in the myxoid stroma (H&E $\times 40$).

하게 관찰되었고 풍부한 점액질 및 연골양 간질 사이로 상피성 성분의 이원적인 종양세포들로 전형적인 다형성 선종의 소견을 보였다(Fig. 4).

환자는 특이한 합병증 없이 술 후 2일째 퇴원하였으며 현재 술 후 4주째로 외래 추적 관찰 중이다.

고 찰

다형성 선종은 주로 주타액선에서 발생하는 양성 종양으로 타액선에서 발생하는 모든 양성 종양의 약 70%를 차지하고 병리 조직학적으로 피막이 형성된 회색의 종양이다. 상피세포 성분과 중배엽성 조직이 혼재되어 있으며 위쪽을 형성하므로 일반적으로 불완전한 절제 이후 흔한 재발이 관찰되고, 악성 전환은 2~9%에서 관찰된다.³⁻⁵⁾ 따라서 피막을 포함한 완전한 국소 절제가 반드시 필요하다. 다형성 선종의 악성 형태인 악성 혼합종에는 다형선종유래암종, 암육종, 전이성 다형성 선종이 있다.⁶⁾ 이 중 조직학적으로는 양성이나 전이가 발생하는 전이성 다형성 선종은 극히 드물다.

대부분의 전이성 다형성 선종은 임상증상이 없는 경우가

Fig. 2. A : Postcontrast neck CTs show no mass lesion on Lt. Parotidectomy area. B, C : There are ovoid superficial tumors with strong enhancement in the left posterolateral neck.

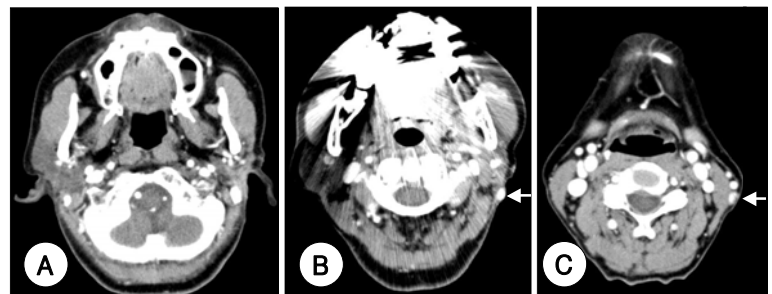
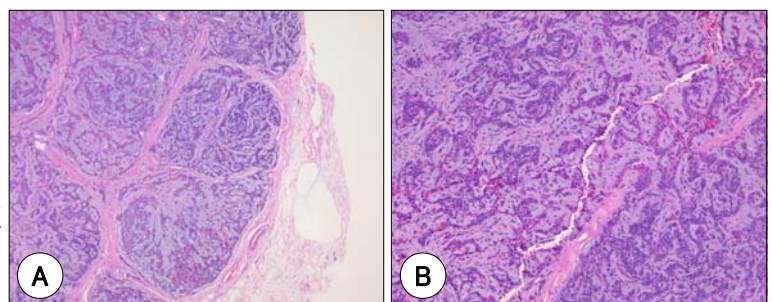


Fig. 3. Intraoperative photographs show three masses adherent to the greater auricular nerve.



Fig. 4. Microscopic finding of the masses is compatible with pleomorphic adenoma. The cellular smear is composed of epithelial cells admixed with fi-bromyxoid background. A : H&E $\times 40$, B : H&E $\times 200$.



많으며 대개 진단은 전이가 확인된 이후 후향적으로 이루어지고 경부로 전이될 경우 경부 종물이 주 증상이다. 전이 병소와 원발 병소의 양성 소견과 악성화가 없는 것이 특징이다.^{7,8)} 전이된 병소의 종양은 양성 상피와 기질 성분으로 이루어져 있으며 조직학적으로 원발 부위와 동일하다. 병리 조직학적 감별 진단으로는 Myxoid MFH, Dedifferentiated Chondrosarcoma가 있다.

전이성 다형성 선종을 보고한 문헌을 살펴보면 전이성 다형성 선종에서 원발성 다형성 선종의 진단 이후 전이 병소의 발견까지는 3~52년의 상당 기간이 있었으며 평균 35년이었다.⁵⁾ 성별에는 유의한 차이가 없었으며 나이는 8~72세였고, 전이 병소 발견의 평균 나이는 60세였다.^{5,9)} 원발성 병소는 대부분 이하선이었으며 악하선과 소타액선들도 있었다. 대부분의 전이 병소는 뼈와 폐였으나 간혹 림프절, 구강, 인두, 피부, 간, 후복막, 신장, 중추 신경 조직도 있었다.

치료는 서서히 성장하고 오랜 기간 동안에도 주위 조직과 구분되는 종양의 특징 때문에 적절한 변연을 포함한 완벽한 외과적 절제가 필요하며 방사선 치료는 전이 병소가 감수성이 적기 때문에 제한적으로 사용되어진다.^{5,9)} 대부분의 전이성 다형성 선종은 원발성 다형성 선종의 국소 재발 이후 전이가 발생한다. 그러므로 피막의 파괴나 파종에 의한 원발성 다형성 선종의 국소 재발을 낮추기 위해 주위의 정상 조직을 포함한 완전한 외과적 절제가 전이성 다형성 선종을 예방하는 가장 좋은 방법으로 보인다.⁷⁾

전이성 다형성 선종의 전이 기전은 더 많은 연구가 필요하지만, 대부분의 증례에서 수술적 치료 후 발생했다는 점에서 혈관 착상에 의한 혈행성 전이 가설이 유력하며 분

에에서는 대 이개 신경을 통한 전이가 의심되었다.^{5,7,8)}

본 증례는 좌측 이하선 종양 절제술 후 국소 재발 없이 경부로 전이된 전이성 다형성 선종을 치험한 매우 드문 경우로 과거력에 다형성 선종이 있었던 환자에게는 전이성 병변의 감별 진단에 전이성 다형성 선종이 포함되어야 하며 향후 재발에 대한 추적 관찰이 필요하리라 생각된다.

중심 단어 : 다형성 선종 · 전이성.

REFERENCES

- 1) Waldron CA, el-Mofty SK, Gnepp DR. Tumors of the intraoral minor salivary glands: A demographic and histologic study of 426 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1988;66 (6):323-33.
- 2) Henriksson G, Westrin KM, Carlsoo B, Silfversward C. Recurrent primary pleomorphic adenomas of salivary gland origin: Intracapsular rupture, histopathologic features, and pseudopodia. *Cancer* 1998;82 (4):617-20.
- 3) Stennert E, Guntinas-Lichius O, Klusmann JP, Arnold G. Histopathology of pleomorphic adenoma in the parotid gland: A prospective unselected series of 100 cases. *Laryngoscope* 2001;111 (12):2195-200.
- 4) Chen KT. Metastasizing pleomorphic adenoma of the salivary gland. *Cancer* 1978;42 (5):2407-11.
- 5) Marioni G, Marino F, Stramare R, Marchese-Ragona R, Staffieri A. Benign metastasizing pleomorphic adenoma of the parotid gland: A clinicopathologic puzzle. *Head Neck* 2003;25 (12):1071-6.
- 6) Hwang JH, Park IS, Kim YB, Yang JM. A case of adenoid cystic carcinoma Ex pleomorphic adenoma of submandibular gland. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2004;47 (6):587-9.
- 7) Raja V, China C, Masaki KH, Nakano G. Unusual presentations of uncommon tumors: Case 1. benign metastasizing pleomorphic adenoma. *J Clin Oncol* 2002;20(9):2400-3.
- 8) Goodisson DW, Burr RG, Creedon AJ, Stirling RW, Morgan PR, Odell EW. A case of metastasizing pleomorphic adenoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1999;87 (3):341-5.
- 9) Takeuchi E, Shimizu E, Sano N, Yamaguchi T, Yanagawa H, Sone S. A case of pleomorphic adenoma of the lung with multiple distant metastasis observations on its oncogene and tumor suppressor gene expression. *Anticancer Res* 1998;18 (3B):2015-20.