

표 지

논문제목: 이하선 다형성 선종의 괴사

간추린 제목: 이하선 다형성 선종의 괴사

저자: 유선열·백 승·최홍란

소속기관: 전남대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

우편번호 501-757

광주광역시 동구 학동 5번지

전남대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

Tel. 82-62-220-5439 Fax. 82-62-228-8712

E-mail: ryu-suny@hanmail.net

공지사항:

별책부수: 50부

이하선 다형성 선종의 괴사

유선열·백 승·최홍란*

전남대학교 치과대학 구강악안면외과학교실, 구강병리학교실*

전남대학교 치의학연구소

Abstract

NECROSIS OF A PAROTID GLAND PLEOMORPHIC ADENOMA : A CASE REPORT

Sun-Youl Ryu, Sung Baek, Hong-Ran Choi*

*Department of Oral and Maxillofacial Surgery and Oral Pathology**,

College of Dentistry, Dental Science Research Institute,

Chonnam National University

Pleomorphic adenomas is the most common neoplasm of the parotid gland, generally presenting as a slowly growing, firm, well-circumscribed, painless nodule. It is often difficult to separate into benign and malignant categories because its bland histomorphologic and cytologic features. This tumor can be rarely associated with cystic change, hemorrhagic necrosis, or spontaneous infarction. Necrosis of lesional tissue may be associated with malignant transformation, particularly in a pleomorphic adenoma.

We report a case of 50-year-old woman presented with a enlarging right parotid mass. Computed tomographic scan demonstrated a right superficial lobe mass with ill-defined border. The preoperative fine needle aspiration yielded necrotic debris and atypical squamous elements that were thought to be compatible with high degree of mucoepidermoid carcinoma. A total parotidectomy with intraoperative frozen section revealed extensive necrosis and diagnosed as malignant tumor. This tumor was finally diagnosed as a pleomorphic adenoma with necrosis on permanent sections. Caution should be exercised in evaluation of the parotid neoplasms with central necrosis to avoid misdiagnosis of such lesions as malignancy.

Key words : parotid gland, pleomorphic adenoma, necrosis, malignancy

I. 서론

다형성 선종은 이하선에서 가장 흔한 종양으로 모든 이하선 종양의 60% 정도를 차지하며 구개, 구순, 협부, 혀, 구후부 등에도 발생한다¹⁻³⁾. 이 종양은 모든 연령층에 발생할 수 있으며 40~60대에 비교적 높은 발생률을 나타낸다. 다형성 선종은 일반적으로 단단하고 경계가 분명하며 무통성으로 서서히 증식하지만, 경우에 따라 동통과 빠른 성장을 나타내기도 한다²⁾. 이 종양은 상피세포와 간엽세포의 두 가지 조직에서 유래된다고 하여 혼합종이라고도 하며 다양한 조직 분포와 형상 때문에 다형성 선종이라고 명명되었다¹⁾.

세침흡인(fine needle aspiration)검사는 진단의 정확도가 비교적 높아 다형성 선종의 술전 진단방법으로 자주 이용되고 있다²⁻⁴⁾. 대부분의 다형성 선종은 세침흡인검사에서 특징적인 소견을 보인다³⁾.

종양 조직의 괴사는 주로 악성종양에서 나타나며 양성종양인 다형성 선종에서 괴사가 나타나면 악성종양의 가능성이 높다. 다형성 선종은 낭종성 변화나 출혈성 괴사를 동반할 수 있으며²⁻⁷⁾, 매우 드물지만 괴사 또는 자발성 경색(spontaneous infarction)을 나타낼 수 있다^{2,5,8)}. 다형성 선종에서 관찰될 수 있는 종양조직의 괴사는 세침흡인검사 후에 발생^{5,8)}할 수 있으나 세침흡인검사를 시행하지 않은 경우에도 괴사 소견이 관찰되기도 하여, 괴사와 자발성 경색을 동반한 다형성 선종은 악성종양으로 오진될 수 있다^{2,5)}. 또한 대타액선에서 관찰되는 자발성 경색은 Warthin's tumor와 연관되어 나타나거나 혹은 수술 후에 발생할 수 있다^{2,3-6,9,10)}.

우리는 우측 이하선의 종물을 가진 50세 여자 환자에서 술전에 시행한 세침흡인검사와 전산화단층촬영 소견 및 수술 중에 시행한 동결생검에서 점액표피양암종(mucoepidermoid carcinoma)으로 진단하였으나, 수술 시에 적출한 종물의 최종 조직병리학적 검사에서 괴사를 동반한 다형성 선종으로 진단된 매우 드문 증례를 경험하였다. 악성종양으로 오진할 수 있는 괴사를 동반한 다형성 선종의 조직병리학적 특징들을 고찰해 봄으로써 이러한 양상을 보이는 종양의 진단과 치료에 참고가 되었으면 한다.

II. 증례보고

2000년 4월 7일 50세 여자 환자가 우측 전이개부의 이하선 종창을 주소로 전남대학교병원 구강악안면외과에 내원하였다. 그녀는 6개월 전부터 우측 전이개부에서 무통성 종창을 인지하였고 종물이 서서히 커져 모 개인병원을 방문한 다음 본과로 의뢰되었다. 병력에서는 전신질환이나 특기할 만한 이상 소견은 없었다.

임상검사에서 우측 이하선 부위에 3 × 4 cm 크기의 단단한 무통성 종물이 존재하였고 경부 림프절병증은 촉진되지 않았으며, 우측 Stenson's duct에서의 타액 분비는 약간 감소된 상태였다(Fig. 1). 전산화단층촬영상에서는 우측 이하선 천엽에 2.5 × 3.0 cm 크기의 경계가 약간 불분명하고 중앙부에 괴사를 나타내는 종물이 관찰되어 우측 이하선의 악성종양으로 진단되었다. 그러나 병소 주변의 골조직 파괴나 경부 림프절병증의 소견은 없었다(Fig. 2). 세침흡인검사에서는 괴사조직을 배경으로 이형성을 보이는 편평양상피세포가 집락 형태로 나타나고 일부에서 관상 세포가 관찰되어 고등급(high grade)의 점액표피양암종으로 진단되었다(Fig. 3).



Fig. 1. Preoperative frontal photograph showing swelling below the right earlobe.



Fig. 2. Computed tomographic scan demonstrating 2 × 3 cm sized mass located at the superficial lobe of the right parotid gland with a peripheral rim of enhancement and a central zone of necrosis.

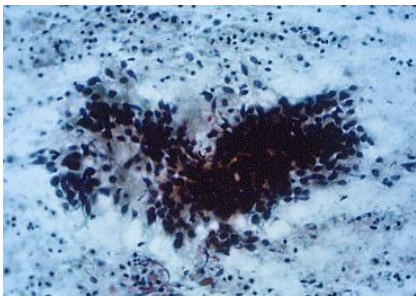


Figure 3. Cytologic material obtained by fine needle aspiration showing a mucus-secreting squamous epithelial cells with hyperchromatic nuclei and deep blue cytoplasm. Necrosis and infarction accompany focal ductal cells. (Hematoxylin-eosin stain, X 100).

술전 임상검사와 전산화단층촬영 소견 그리고 세침흡인검사 소견을 종합하여 우측 이하선에 발생한 고등급의 점액표피양암종으로 진단하였다. 치료계획은 먼저 외과적 치료로서 우측 이하선 전적출술, 우측 경부청소술, 안면신경 절제술 및 대이개신경을 이용한 자가신경이식을 시행한 다음 수술 후 방사선 치료를 하기로 하였다. 2000년 5월 10일 비기관삽관술에 의한 전신마취 하에 절개선을 디자인하고 (Fig. 4) 종양 부위를 노출시켰다. 수술 중에 시행한 종물의 동결생검 소견에서도 광범위한 괴사조직을 중심으로 케라틴을 형성한 편평상피세포와 점액을 분비하는 관상 구조가 관찰되었고, 일부 편평상피세포에서 과염색증과 유사분열을 보이는 세

포가 관찰되어 점액표피양암종으로 진단되었다(Fig. 5). 동결생검 결과에 따라 우측 이하선 전적출술과 경부청소술을 시행하여 종물을 한 덩어리로 절제하였으며, 이 때 절제된 우측 안면신경은 좌측 대이개신경을 이용한 자가신경이식술로 재건하였다(Fig. 6).



Fig. 4. Intraoperative photograph showing incision design for a total parotidectomy and radical neck dissection.

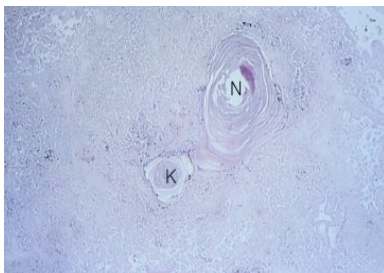


Fig. 5. Histologic frozen section showing metaplastic epithelial cells, a extensive necrosis (N) and keratin (K). (Hematoxylin-eosin stain, X 30).

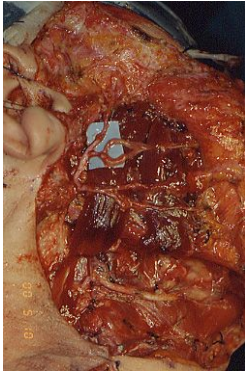


Fig. 6. Intraoperative photograph showing the microanastomosed facial nerve with the autologous greater auricular nerve.

절제한 종물을 횡절단하여 단면을 육안적으로 관찰한 결과 내부에서는 괴사된 듯한 노란색의 물질을 볼 수 있었고 종물 주변부는 비교적 경계가 명확하였다(Fig. 7). 적출한 종물의 조직병리학적 소견은 동결생검 검사와 유사하게 조직은 광범위한 괴사 소견을 보이며 괴사조직의 중심부와 주변부에서 케라틴을 형성하는 편평상피세포의 집락, 관상구조와 출혈 소견이 관찰되었다. 일부 편평상피세포에서는 유사분열세포가 나타났고 각화진주(keratin pearl)를 형성하기도 하였다. 그러나 연속절편을 검토한 결과 다형성 선종의 특징적인 소견인 점액성-연골양 간질(myxoid-chondroid stroma), 초자양 간질과 함께 방추형 혹은 형질세포양 근상피세포(myoepithelial cell)가 섬유 간질에 흩어져서 관찰되고 종양의 경계가 확실하여 괴사를 동반한 다형성 선종으로 진단되었다(Fig. 8).



Fig. 7. Cross-sectional view of the surgical specimen containing yellow tumor material.

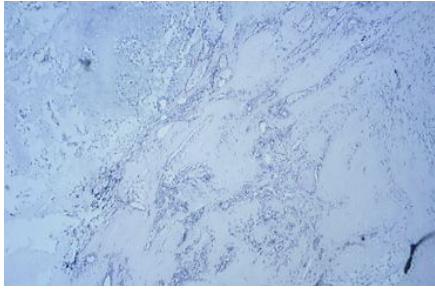


Fig. 8. Histologic section of the pleomorphic adenoma showing ductal epithelium, squamous metaplasia and necrotic area. (Hematoxylin-eosin stain, X 100).

수술 후 2년 여 경과한 현재까지 재발 소견은 없으며 술후 합병증으로 Frey's syndrome 증상을 보이고 있다. 신경문합술을 시행한 안면신경의 가지들은 완전하지는 않지만 하악지를 제외하고는 거의 기능이 회복된 양상을 보였다(Fig. 9).



Fig. 9. Facial photographs showing weakness of the mandibular branch of facial nerve at postoperative 18 months.

III. 고 찰

본 증례는 우측 이하선에 종물을 가진 50세 여자 환자가 술전에 시행한 임상검사와 전산화단층촬영, 세침흡인검사 그리고 수술 중에 시행한 종물의 동결생검 소견에서 점액표피양암종으로 진단되어 우측 이하선 전절제술과 경부청소술을 시행하고 종물을 한 덩어리로 절제하였으며, 이 때 절제된 우측 안면신경은 좌측 대이개신경을 이용한 자가신경이식술로 재건하였다. 그러나 최종 조직병리학적 검사에서는 괴사를 동반한 다형성 선종으로 확진되었다. 만약 술전 검사 또는 술중 동결생검에서 다형성 선종으로 진단되었다면 광범위 외과적 절제술 또는 이하선 전엽절제술 만으로도 치료가 가능한 증례였다고 생각된다. 본 증례는 법적 문제까지도 야기될 수 있는 경우이므로 임상 의사들은 다형성 선종의 진단과 치료에 특별히 주의를 기울여야 함을 시사한다.

본 증례에서는 술전에 시행한 세침흡인검사서 편평상피세포의 집락에서 이형성 세포가 관찰되었고 수술 중 시행한 동결절편에서도 괴사조직을 동반한 편평상피화생이 관찰되어 고등급의 점액표피양암종으로 진단되었다. 그러나 최종 검사에서는 이전의 소견과 함께 다형성 선종의 특징인 점액성-연골양 간질과 종양성 근상피세포가 관찰되어 드물게 발생하는 괴사를 동반한 다형성 선종으로 진단되었다.

타액선에서 나타나는 괴사는 세침흡인 검사 후^{8,9)} 혹은 수술 후, 아주 드물게는 세침흡인검사를 시행하지 않은 종물에서도^{5,8)} 나타날 수 있으며 일반적으로 악성변화를 의미한다. 본 증례에서와 같이 편평상피 화생과 괴사 조직이 동반된 경우는 편평세포암종이나 점액표피양암종과의 감별진단이 필요하다^{2,7)}.

Allen 등⁵⁾은 5예의 다형성 선종과 2예의 세관선종(canalicular adenoma)에서 괴사를 관찰하였으며 신생물이 대구개공에 존재하는 경우 대구개동맥 또는 소구개동맥을 압박하여 혈류를 제한하기 때문에 이로 인해 허혈성 괴사가 발생할 수 있다고 하였다. Layfield 등²⁾은 심근 경색이 두 번 발생한 병력이 있는 환자의 다형성 선종에서 발생한 괴사는 자발성 경색과 연관되어 나타난 경우라고 보고하였는데 허혈(ischemia)로 인한 괴사라고 추측하였다. 본 증례에서 환자는 전신질환이나 특기할 만한 병력 소견이 없어 괴사의 원인을 확실히 알기 어렵지만, 종물이 성장하면서 주위 혈관을 압박하여 혈류 공급이 감소됨으로써 나타난 허혈이 원인이 아닌가 생각된다.

Dardick 등⁹⁾은 흰쥐 악하선에서 동맥결찰에 의한 편평상피 화생을 관찰하였는데, Layfield 등²⁾은 보통 타액선의 경색과 괴사 후에 나타나는 수복(repair) 과정에 편평상피 화생이 나타난다고 하였다. 본 증례에서 관찰된 편평상피 화생은 암종

에 해당할 정도의 세포이형성 소견으로는 부족하고 경색 혹은 괴사 후에 수복과정으로 나타나는 현상으로 생각된다.

일반적으로 전산화단층촬영 소견에서 이하선의 양성종양은 비교적 분명한 경계를 나타내지만 본 증례에서는 불분명한 경계를 갖는 종물이 관찰되어 악성종양으로 진단되었다. 세침흡인검사와 동결생검 소견에서는 조직의 괴사와 편평상피 화생 등을 나타내 점액표피양암종으로 진단되었다. 그러나 수술 후 절제한 종물에 대한 조직병리학적 검사에서는 세포의 괴사와 연관된 편평상피세포 집락과 함께 다형성 선종의 특징적인 소견이 관찰되어 괴사를 동반한 다형성 선종으로 최종 진단하였다. 본 증례는 매우 드문 경우로서 악성종양으로 오진할 수 있는 다형성 선종의 괴사와 조직병리학적 특징들을 고찰해 봄으로써 향후 이 종양의 진단과 치료에 도움이 되리라 사료된다.

IV. 요약

본 증례는 우측 이하선에 종물을 가진 50세 여자 환자에서 술전에 시행한 세침흡인검사와 전산화단층촬영 소견 및 술중에 시행한 동결생검에서 괴사소견으로 인해 점액표피양암종으로 진단되어 우측 이하선 전적출술과 경부청소술 등을 시행하였으나 수술 후 조직병리학적 검사에서 괴사를 동반한 다형성 선종으로 최종 진단되었다. 괴사를 동반한 다형성 선종에서 보이는 편평상피세포는 점액표피양암종에서 나타나는 편평세포의 특징으로 오진할 수 있으므로 주의해야 한다. 본 증례는 악성종양으로 잘못 진단할 수 있는 다형성 선종의 괴사와 조직병리학적 특징들을 이해함으로써 임상 의사들의 오진 가능성을 예방하고 다형성 선종의 진단과 치료에 주의해야 함을 시사한다.

참고문헌

1. Foote FW, Frazell EL: Tumors of major salivary glands. *Cancer* 1953;6:1069-1131.
2. Layfield LJ, Reznicek M, Lowe M, Bottles K: Spontaneously infarction of a parotid gland pleomorphic adenoma. *Acta Cytol* 1992;36:381-386.
3. Eneroth CM, Zajicek J: Aspiration biopsy of salivary gland tumors: III. Morphologic studies on smears and histologic sections from 368 mixed tumors. *Acta Cytol* 1966;10:440-454.
4. Layfield LJ, Tan P, Glasgow BJ: Fine needle aspiration accuracy and pitfalls in the diagnosis of salivary gland lesions. *Arch Pathol Lab Med* 1987;11:345-353.
5. Allen CM, Damm D, Neville B, Rodu B, Page D, Weathers DR: Necrosis in benign salivary gland neoplasms. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1994;78:455-461.
6. Donath K: Zur pathohistologie des Speicheldruseninfarktes der glandula parotis [necrotizing sialometaplasia]. *Laryngol Rhinol Otol (Stuttg)* 1979;58:392-393.
7. Eisenberg E: Capsule dermatopathology: Minor salivary gland infarction with infiltrating squamous nests. *J Dermatol Surg Oncol* 1986;12:929-932.
8. Gottschalk-Sabag S, Glick T: Necrosis of parotid pleomorphic adenoma following fine needle aspiration. *Acta Cytol* 1995;39:252-254.
9. Dardick I, Jeans D, Sinnott NM, Wittkuhn JF, Kahn HJ, Baumal R: Salivary gland components involved in the formation of squamous metaplasia. *Am J Pathol* 1985;119:33-43.
10. Mesa ML, Gertler RS, Schneider LC: Necrotizing sialometaplasia: Frequency of histological misdiagnosis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1984;57:71-73.

저자연락처

우편번호 501-757

광주광역시 동구 학동 5번지

전남대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

유 선 열

E-mail : ryu-suny@hanmail.net

Reprint requests

Sun-Youl Ryu

Dept. of OMFS, College of Dentistry, Chonnam National University

5 Hak-Dong, Dong-Ku, Gwangju, 501-757, South Korea

Tel. 82-62-220-5439 Fax. 82-62-228-8712

E-mail: ryu-suny@hanmail.net

Figure Legends



Fig. 1. Preoperative frontal photograph showing swelling below the right earlobe.



Fig. 2. Computed tomographic scan demonstrating 2×3 cm sized mass located at the superficial lobe of the right parotid gland with a peripheral rim of enhancement and a central zone of necrosis.

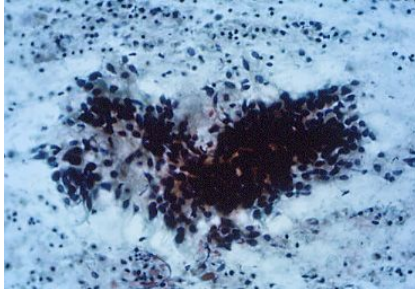


Figure 3. Cytologic material obtained by fine needle aspiration showing a mucus-secreting squamous epithelial cells with hyperchromatic nuclei and deep blue cytoplasm. Necrosis and infarction accompany focal ductal cells. (Hematoxylin-eosin stain, X 100).

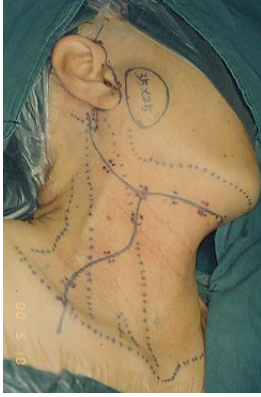


Fig. 4. Intraoperative photograph showing incision design for a total parotidectomy and radical neck dissection.

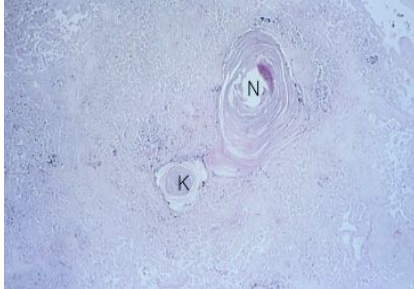


Fig. 5. Histologic frozen section showing metaplastic epithelial cells, a extensive necrosis (N) and keratin (K). (Hematoxylin-eosin stain, X 30).

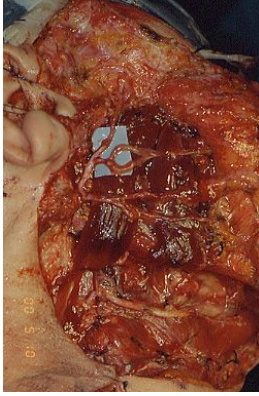


Fig. 6. Intraoperative photograph showing the microanastomosed facial nerve with the autologous greater auricular nerve.



Fig. 7. Cross-sectional view of the surgical specimen containing yellow tumor material.

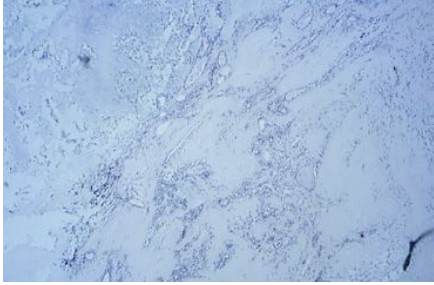


Fig. 8. Histologic section of the pleomorphic adenoma showing ductal epithelium, squamous metaplasia and necrotic area. (Hematoxylin-eosin stain, X 100).



Fig. 9. Facial photographs showing weakness of the mandibular branch of facial nerve at postoperative 18 months.