

# 소타액선에 발생한 선양 낭포암

경북대학교 치과대학 치과방사선학교실

권경윤 · 이경호 · 김동윤 · 최갑식

## 목 차

- I. 서 론
- II. 증 례
- III. 고 찰
- IV. 결 론
- 참고문헌
- 영문초록
- 사진부도

## I. 서 론

선양 낭포암(Adenoid cystic carcinoma)은 소타액선에 호발되는 악성 타액선 종양으로 모든 타액선 종양의 4~8%, 소타액선 종양의 14~25%를 차지하며, 소타액선 중에서도 구개점막에 가장 호발된다. 임상적으로 다형성 선종과 유사한 양상을 보이며, 서서히 지속적으로 성장하여 장년층에서 남녀 비슷한 빈도로 발생된다<sup>1~3)</sup>. 방사선학적인 소견은 비교적 경계가 불분명한 병소로 관찰되며, 전산화 단층촬영사진상에서는 heterogeneous, low density의 연조직 종창으로 관찰되며, 자기공명영상에서는 heterogeneous, high signal intensity의 병소로 관찰된다.

조직병리학적으로 충실형, 관상형, 사상형 등으로 분류되며, 섬유성 또는 초자양 기질내에 작고 균일한 기저세포양 세포들이 색상형(cord-like) 또는 관상형(ductlike)으로 배열되어 있다. 임파절이나 신경주위조직으로 전파되며, 전이를

은 높은 것으로 보고되었다<sup>2)</sup>.

선양 낭포암의 치료는 지속적인 잠행성 성장과 주위조직 등으로의 전이로 인해 광범위한 외과적 절제술, 방사선 치료, 그리고 화학 요법 등이 병행된다<sup>1,4,5)</sup>.

저자들은 구개부와 구강저의 종창을 주소로 내원한 환자들의 임상, 방사선학적 및 조직병리학적 검사를 통해 소타액선에 발생한 전형적인 선양 낭포암을 경험하고 문헌고찰과 함께 보고한다.

## II. 증 례

### 증 례 1

#### 임상 소견

63세의 여자 환자가 우측 경구개부의 무통성 연조직 종창을 주소로 내원하였다. 병소 부위의 점막은 정상이었으며, 촉진시 동통과 경결감은 나타나지 않았다. 병소는 2개월전부터 성장되었으며, 과거 전신 병력으로는 결핵과 상악동염이 있었다.

#### 방사선학적 소견

구내방사선사진 및 파노라마방사선사진에서 상악 우측 경구개부에 비교적 경계가 불분명한 방사선투과성 병소가 관찰되었으며(Fig. 1), 전산화 단층촬영사진상에서는 우측 경구개부에 low density의 연조직 종창이 주변 조직인 상악

동, 상악 결절, 익상돌기판, 비인두, 비공으로의 침윤과 함께 관찰되었다(Fig. 2~5).

#### 조직병리학적 소견

농염된 작고 균일한 크기의 기저양 세포들이 초자양 또는 섬유양 기질내에 충실형으로 배열되어 있고, 그 내부에 괴사 조직이 관찰되었다(Fig. 6).

#### 치료 및 예후

상악 부분절제술과 경부광청술이 시행되었으며, 술후 1년까지의 추적조사에서 재발의 소견은 관찰되지 않았다.

### 증 례 2

#### 임상 소견

31세의 여자 환자가 좌측 설부위와 악하선부의 연조직 종창과 둔통을 주소로 내원하였다. 이 병소는 1년전부터 성장되었으며, 현증으로는 구강저의 발적, 섬유증, 구강건조를 호소하였다.

#### 방사선학적 소견

타액선 조영술에서 좌측 악하선의 관폐쇄로 조영제가 주입되지 않았다(Fig. 7). 전산화 단층 촬영사진상에서 좌측 구강저와 설부위에 비교적 잘 경계되어지고, 조영제에 증강되는 불균일한 밀도를 가지는 연조직의 종창이 관찰되었으며, 인접골의 파괴는 관찰되지 않았다(Fig. 8, 9).

#### 조직병리학적 소견

농염된 작고 균일한 크기의 기저양 세포들이 초자양 또는 섬유양 기질내에 사상형으로 배열되어 있고, 그 내부에는 점액양 물질을 함유하고 있었다(Fig. 10).

#### 치료 및 예후

방사선 치료가 시행되었으며, 이후 1년까지의 추적조사에서 재발의 소견은 관찰되지 않았다.

### III. 고 찰

선양 낭포암은 조직병리학적으로 농염되는 작고 균일한 기저양 세포들이 섬유양 또는 초자양 기질내에 색상형 또는 도관 형태로 배열되어 있고, 그 내부에는 점액 또는 초자양 물질을 함유하고 있으며, PAS 염색에서 약양성으로 관찰되고, 사상형, 벌집형, 스위치즈형 등의 형태로 관찰된다. 이 병소는 중앙세포들이 신경주위 간극이나 신경주위초로 전파되며, 악성의 소견을 보이지만 세포 분열은 극히 드문 타액선 상피성 기원의 악성 종양으로서 사상형, 관상형, 충실형 등으로 분류되고, 그 중 충실형이 가장 나쁜 예후를 보이며, 사상형이 가장 좋은 예후를 나타내는 것으로 보고되었다<sup>2,6)</sup>. 그러나, 1992년 Spiro와 Andrew<sup>7)</sup>는 조직학적 등급만으로 선양 낭포암의 전체적 예후를 예견하기는 불가능하다고 보고하였다. 사상형은 상피세포들이 벌집형으로 배열되어 있고, 관상형은 초자양 또는 섬유양 기질내에 상피세포들이 색상형으로 배열되어 있으며, 충실형은 호염기성 세포질 입방형 세포들로 구성되어 농염된다. 증례 1의 경우는 충실형으로 내부에 괴사조직을 포함하고 있었고, 증례 2의 경우는 전형적인 사상형으로 관찰되었으며 두 증례 모두에서 술후 1년간의 추적조사에서 재발의 소견은 관찰되지 않았다. 또한 병소가 임파절을 둘러싸는 연조직을 침범하여 타부위로 쉽게 전이된다는 보고<sup>8)</sup>가 있었으나, 1990년 Jacqueline등<sup>9)</sup>은 선양 낭포암이 특징적으로 신경 주위조직으로 전파되고, 다른 부위로 전이되는 경우도 많지만 이러한 소견들은 서로 통계학적으로 무관하다고 보고하면서, 국소적인 임파절로의 전이는 드물다고 보고하였다. 또한, 이 병소의 20~50%가 경부 임파절, 폐, 골격, 뇌, 간, 신장 등으로 전이된다고 보고되었으며<sup>1,2)</sup>, 경구개에 발생한 선양 낭포암의 경우는 대구개 신경을 따라 삼차신경총으로 전파되어 안와하신경과 안면 부위로 전이된 경우가 보고되었다<sup>10)</sup>. 이번 증례들에서 두 경우 모두 다른 부위로의 전이는 관찰되지 않았으나, 증례 1에서는 국소적 인접조직으로의 침윤이 관찰되었다.

선양 낭포암은 임상적으로 40~60세의 나이에 남녀 비슷한 빈도로 발생되며, 20세 이하에서 발생하는 경우는 드물다. 서서히 잠행성으로 성장되며 주된 임상증상은 종괴의 발생이며, 동통이나 경결감, 지각이상 등이 종종 나타난다. 이러한 임상증상은 병소 발생후 4개월정도 이후에서 나타나며, 심한 악성도를 보이는 경우 빨리 성장하고 신경을 침범하여, 동통을 유발시킬 수 있다<sup>1,11)</sup>. 이번 증례에서는 63세와 31세의 여성에서 발생되었고, 첫번째 증례는 선양 낭포암의 가장 호발부위인 구강개 점막에서 발생되었고, 2개월 전부터 성장된 무통성의 종창을 호소하였고 촉진시 동통과 경결감은 없었으며, 두번째 증례도 호발부위인 구강저의 소타액선에서 발생되었고, 약 1년전부터 성장한 종창과 함께 약간의 동통을 동반하였으며, 구강내 소견으로는 병소 부위 점막의 섬유증, 발적, 구강 건조를 호소하였다.

방사선학적 소견은 단순방사선사진에서는 잘 관찰되지 않으나 타액선이 골에 인접해 있으므로 골침범이 종종 일어나며, 이 경우 편평상피세포암 등과의 감별이 힘들고, 골침범이 일어난 경우에는 경계가 불분명하고 불규칙한 변연을 가지는 병소로 관찰된다<sup>3,6)</sup>. 신경주위로 전파될 경우에는 신경이 지나가는 두개저공의 확대가 나타날 수 있으며<sup>1)</sup>, Yoshimura 등<sup>12)</sup>은 하악에 발생한 선양 낭포암이 하악관내의 하치조 신경을 따라 갓세르 신경절까지 침범된 증례를 보고하였다. 전산화 단층촬영사진상과 자기공명영상에서 비교적 잘 경계되어진 불균일한 연조직 종괴로 관찰되며, 전산화 단층촬영사진상에서는 조영제에 증강된 경계를 가진 low density의 병소로, 자기공명영상에서는 high signal intensity의 병소로 관찰된다<sup>6,13)</sup>. 선양 낭포암의 진단에서 자기공명영상의 유용성은 국소적 침윤과 전이가 있을 경우, 생검으로 접근이 어려운 부위까지 관찰이 가능하고 전반적인 병소의 관찰이 가능한 점이다. 이번 두 증례에서 신경주위 전파는 관찰되지 않았고, 첫번째 증례는 전산화 단층촬영사진상에서 인접조직으로의 침윤을 동반한 비교적 경계가 불분명한 heterogeneous, low density의 연조직 종괴로 관찰되었고, 두번째 증례는 단순

방사선사진에서 관찰되지 않았던 병소였으나 전산화 단층촬영사진상에서 조영증강된 경계를 가지는 heterogeneous, low density의 연조직 종괴를 관찰할 수 있었다. 조직병리학적 소견과 방사선사진상에서의 양상과의 상관관계는 조직병리학적으로 더 예후가 나쁜 것으로 보고된 충실형에서 골파괴가 더 많이 나타나는 것으로 보고된 바 있다<sup>14)</sup>. 이번 증례에서도 골침범이 관찰된 첫번째 증례의 조직병리학적 형태는 충실형이었고, 골침범이 관찰되지 않았던 두번째 증례의 조직병리학적 형태는 가장 예후가 좋은 것으로 보고된 사상형이었다.

선양 낭포암의 치료는 지속적인 잠행성 성장과 신경 주위조직, 간질조직, 주위 임파조직, 골수강 등으로의 전파로 인한 높은 재발율과 호발부인 소타액선에 발생된 경우에는 종종 골침범이 일어나므로 광범위한 외과적 절제술과 방사선 치료가 병행된다<sup>1,7,15)</sup>. 1983년 Thomas와 Gropp<sup>16)</sup>은 Adriamycin의 효과에 대해 보고하였으나, Hirota와 Osaki는 화학요법이 선양 낭포암의 치료에 효과가 없다고 보고하였으며, 1988년 Hemprich와 Schmidse<sup>17)</sup>는 편평상피세포암보다 더욱 광범위한 절제술이 필요하다고 하였다. 첫번째 증례는 상악 부분절제술과 경부파형술이 시행되었으며, 두번째 증례는 방사선 치료가 시행되었다.

이 병소의 예후에 관해서 1974년 Spiro 등<sup>18)</sup>은 병소의 지속적인 잠행성 성장과 신경주위 전파로 인한 높은 재발율로 인해 광범위한 외과적 절제와 방사선 치료를 병행해야 한다고 보고하였고, 1992년 Spiro와 Havos<sup>16)</sup>는 선양 낭포암의 조직학적 형태보다 임상적인 진행단계가 더 중요하다고 보고하였으며, 예후의 예견에 조직학적인 소견만으로는 불충분하다고 보고하면서 생존율, 국소적 또는 원격 전이 등의 소견을 중요시하였다. 특히 임상에서 서서히 자라지만 공격적인 선양 낭포암은 주위 조직을 잠행성으로 침범하므로 세심한 주의가 요구된다. 선양 낭포암의 완치율은 낮지만 15년 이상의 생존율이 62~88%이므로<sup>12)</sup>, 이번 두 증례는 치료후 1년까지의 추적조사에서 재발의 소견은 관찰되지 않았으나

계속적인 추적조사가 필요한 것으로 생각된다.

#### IV. 결 론

저자들은 우측 경구개부의 종창과 좌측 구강 저부위의 종창, 동통을 주소로 내원한 두 명의 여자 환자에서 임상, 방사선학적 및 조직병리학 적 검사를 통해 소타액선에 발생된 선양 낭포암 의 증례들을 관찰하고 다음의 결과를 얻었다.

1. 임상 소견은 경구개부의 무통성 연조직 종창 과, 동통을 동반한 구강저의 종창으로 나타났 고, 피개 점막은 정상이었다.
2. 방사선학적으로 경구개부에 발생된 증례는 인 접 골침범이 있는 경계가 불분명한 연조직 종 창으로 관찰되었고, 병소의 내부는 불균일하 였다. 구강저에 발생된 증례는 인접 골침범이 없이 조영 증강된 경계를 가지는 불균일한 흑 화도의 연조직 종창으로 관찰되었다.
3. 조직병리학적으로 농염된 작고 균일한 기저양 세포들이 초자양 또는 섬유양의 기질내에 충 실형과 사상형으로 관찰되었다.

#### REFERENCES

1. Rankow RM, Polayes IM: Surgical and clinical pathology of salivary gland tumors ; Diseases of the salivary glands, Saunder Co., pp. 126-129, 261, 278-279, 1980.
2. Shafer WG, Hine MK, Levy BM : Oral pathology ; Adenoid cystic carcinoma, 4th ed. Saunder Co., pp. 245 -246, 1983.
3. Goaz PW, White SC : Oral radiology ; Malignant tumors of salivary glands, 3rd ed. The C.V. Mosby Co., pp. 480-481, 699, 1994.
4. Chaudhry AP, Vickers RA, Gorlin RJ : Intraoral minor salivary gland tumors ; An analysis of 1414 cases,

- Oral Surg. 14:1194-1226, 1961.
5. Luna MA, Stimson PG, Bardwill JM : Minor salivary gland tumors of the oral cavity, Oral Surg. 25:71-86, 1968.
6. Som PM, Curtin HD : Head and neck imaging, 3rd ed. The C.V. Mosby Co., pp. 892-893, 1282-1288, 1996.
7. Spiro RH, Andrew GH : Stage means more than grade in adenoid cystic carcinoma, Am. J of Surg. 164:623-628, 1992.
8. Allen MS, Marsh WL : Lymph node involvement by direct extension in adenoid cystic carcinoma, Cancer 38:2017-2021, 1976.
9. Jacqueline EW, Gordon BS, Isaac W : Intraoral adenoid cystic carcinoma, Cancer, 66:2031-2033, 1990.
10. 임숙영, 최은숙, 김민숙, 고광준 : 신경주위 전파를 수반 한 유선낭종암, 대한구강악안면방사선학회지, 22:375-385, 1990.
11. 임창윤 : 구강병리학, 고려의학, pp. 242-244, 393, 1992.
12. Yoshimura Y, Hasega K, Wada T, et al : Metastasis of adenoid cystic carcinoma of the mandible to the Gasserian ganglion, J Am Dent Assoc. 94:469, 1978.
13. Steven MM, Ira FB, Patricia CD, Stephen MF, Louis HJ, James CH : Parotid masses : MR Imaging, Radiology, pp. 411-414, 1987.
14. Yoshikazu S, Keiji T, Akira T, Takuro W : Radiographic evaluation of bone invasion of adenoid cystic carcinoma in the oral and maxillofacial region, J Oral Maxillofacial Surg. 52:821-826, 1994.
15. Thomas G, Groppe CW : Adenoid cystic carcinoma of the salivary gland ; sustained complete response to chemotherapy, Cancer, 51:589-590, 1983.
16. Spiro RH, Huvos AG : Stage means more than grade in adenoid cystic carcinoma, Am J Surg. 164:623-628, 1992.
17. Hemprich A, Schmidseder R : The adenoid cystic carcinoma, J Cranio-Max-Fac. Surg. 16:136-139, 1988.
18. Spiro RH, Huvos AG, Strong EW : Adenoid cystic carcinoma of salivary origin ; A clinicopathologic study of 242 cases, Am J Surg. 128:512-520, 1974.

-ABSTRACT-

## ADENOID CYSTIC CARCINOMA OF THE MINOR SALIVARY GLANDS

Kyung-Yun Kwon, Kyung-Ho Lee, Dong-Youn Kim, Karp-Shik Choi

*Department of Dental Radiology, College of Dentistry, Kyungpook National University*

Adenoid cystic carcinoma is a malignant salivary gland tumor with typical histologic patterns. The majority of these tumors occurs in the minor salivary glands, especially mucosa of the hard palate. The authors experienced the patients, who complained the tumor-like soft tissue masses on the palatal and mouth floor area. After careful analysis of clinical, radiological and histopathological findings, we diagnosed them as adenoid cystic carcinomas in the minor salivary glands, and obtained results were as follows :

1. Main clinical symptoms were a slow growing soft tissue mass with normal intact mucosa on the palatal area, and soft tissue mass with mild pain on the mouth floor area.
2. In the radiographic examinations, soft tissue masses were observed with invasion to adjacent structures, and moderate defined, heterogeneous soft tissue mass with enhanced margin, respectively.
3. In the histopathologic examinations, dark-stained, small uniform basaloid cells in the hyaline or fibrous stroma were observed as *solid and cribriform* patterns, respectively.

논문사진부도

