

구개부에 발생한 다형성선종의 치험례

이창진 · 김태열 · 김효언 · 김희광 · 전인성 · 윤규호

인제대학교 부속 상계백병원 구강악안면외과학교실

Abstract

TREATMENT OF PLEOMORPHIC ADENOMA ON PALATE A CASE REPORT

Chang-Jin Lee, Tae-Youl Kim, Hyo-Eon Kim, Hee-Kwang Kim
In-Seong Jeon, Kyu-Ho Yoon

Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, Sanggye Paik Hospital, Inje University

Pleomorphic adenoma is the most common of all salivary gland tumors, constituting over 50 per cent of all cases of tumors, and approximately 90 per cent of all benign salivary gland tumors.

Since the term 'mixed tumor' was introduced by Broca for its dual origin of epithelial and mesenchymal elements, the term pleomorphic adenoma suggested by Willis characterizes closely the unusual histologic pattern of the lesion.

The parotid gland is the most common site but it may occur in any of the salivary glands. It is somewhat more frequent in women and in the fourth to sixth decades, but they are also relatively common in young adult and have been known to occur in children. Treatment of choice is surgical excision. Adequate surgery with safe margin reduce its recurrence rate.

We represent a case of pleomorphic adenoma with literature review in 65-year old male occurred in the palate. The lesion was successfully treated by surgical excision.

I. 서 론

다형성선종은 모든 타액선 종양 중 가장 빈발하게 발생하는 종양으로 Broca는 상피세포와 간엽세포의 두 가지 조직에서 유래된다고 하여 혼합종이라는 용어를 처음 제안하였고, Willis는 그 다양한 조직분포와 형상을 일컬어 다형성선종이라 명명하였다.

이 질환은 모든 타액선 유래 종양의 50% 이상을 차지하며 양성 타액선 종양의 90%를 차지한다고 알려져 있다. 주로 이하선에서 호발하며 소타액선에 발생시 구개부, 구순, 혀, 구후부 등의 순으로 호발하며 모든 연령층에 발생할 수 있으나 40~60세에 다소 높은 발생률을 보인다.

이 종양은 타액선 종양 중 조직학적 변이가 가장 다양하나 결합조직 피낭으로 잘 경계되어 있으며, 상피성분은 다양하여 분명한 선관구조를 보이기도 하고 상피세포의 소규모 덩어리만을 나타내기도 하며 성상, 침상, 다각형의 모양을 나타내기도 하는데 선관구조에는 호산성 물질을 함유하기도

한다. 가장 특징적인 소견은 소성의 점액양 간질에 높은 비율로 존재하는 근상피세포이다¹⁾.

치료는 병소의 완전한 절제이며 방사선 치료는 효과가 거의 없다고 알려져 있다. 재발율은 40~45%로 높은 편이고 치료 없이 방치되거나 재발이 된 경우에는 악성전환이 일어날 수 있고 3~15%에서 악성전환이 보고되고 있다^{2,3)}.

본원에서는 65세 남자의 구개부에 발생한 다형성선종을 완전 적출 하여 양호한 결과를 보인 치험례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

II. 증 례

1. 연령 및 성별 : 65세 남성
2. 주소 : 구개부 종창으로 인한 저작 및 발음장애
3. 초진일 : 1996.2.21



Fig. 1. 초진시 구내소견
우측 경구개부를 중심으로 2.5X5cm의 종물이 하부에 견고히 부착되어 저작장애 및 발음장애를 유발하고 있다.



Fig. 2. 초진시 CT소견
경구개에서 구강내로 돌출 되어진 2.5X4X5cm의 난원형 종물이 관찰된다.
종물은 연조 조직에 국한되어 있으며 인접 골조직의 파피나 잠식은 보이지 않는다.

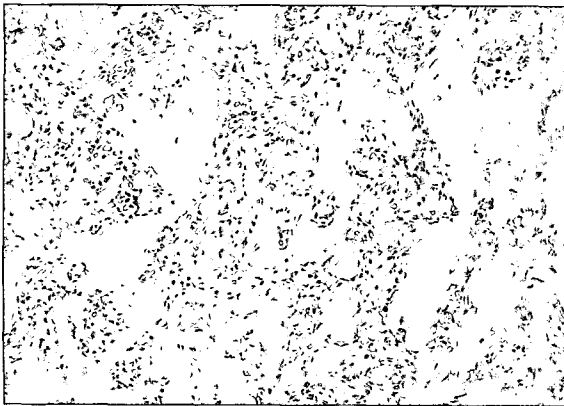


Fig. 3. H-E 염색 조직소견(X100)
저배율 소견으로 입방형 세포의 전반적인 분포와 유점소, 점액양 간질을 보이나 위연골 및 골양조직은 관찰되지 않았다.

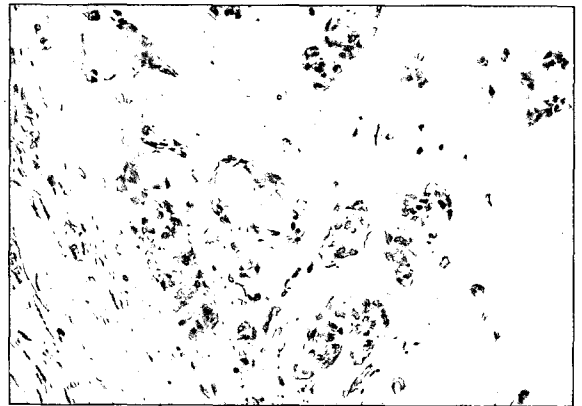


Fig. 4. H-E 염색 조직소견(X400)
고배율 소견으로 중앙부에 관상구조를 보이고 있다.

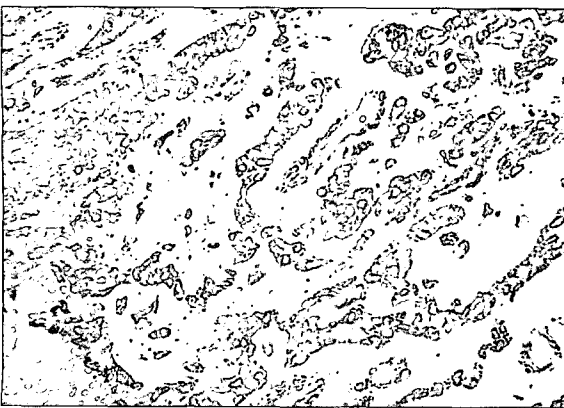


Fig. 5. Vimentin 염색소견
진한갈색으로 나타나는 부분이 vimentin에 양성반응을 보이는 근 상피세포이다.

4. 기왕력 : 약 15년 전부터 종창이 시작되었으며, 별다른 통증이나 장애 없이 지내오다가 종물의 성장에 따른 저작 및 발음상 장애를 느껴 본원에 내원하게 됨.
5. 현증 : 우측 경구개부를 중심으로 중심선을 넘어 2.5 × 5cm의 단단한 종물이 하부에 견고히 부착되어 있었다(Fig. 1).
6. CT 소견 : 경구개에서 구강내로 돌출 되어진 2.5 × 4 × 5cm 의 난원형 종물이 관찰되었으며, 인접 상악동이나 비강으로의 잠식은 보이지 않았고, 비정상적인 임파절의 성장은 보이지 않았다(Fig. 2).

7. 병리조직소견

생검을 시행한 결과 호산성 괴(eosinophilic coagulum)를 함유한 관상구조와 초자양신생세포(neoplastic hyaline cell), 국소적 점액성 기질(focal myxoid stroma), 연골양 물질(cartilage-like material)이 관찰되었으며, 근상피세포가 지배적이었다. keratin17과 vimentin을 이용한 염색에서 풍부한 myoepithelium을 보였으며, s-100 α protein을 이용한 염색에서 선세포와 ductal segment를 관찰할 수 있었다(Fig.3~5).

8. 경과 및 처치

통상적인 구강내 접근법으로 종물의 완전절제를 시행하고 절제부위에 바셀린과 항생제연고를 혼합한 거즈로 덮은 후 레진상을 장착시켰다. 절제후 연조직 결손부는 육아조직 성변화를 거친 후 상피화되었다. 술후 3년 6개월 경과 후 재발 없이 잘 치유된 예후를 관찰할 수 있었다.

Ⅲ. 총괄 및 고찰

소타액선은 구강내 전반에 분포되어 있으며 그중 구순과 구개에 가장 높은 비율로 존재하게 된다⁴⁾. 이러한 타액선 모두에서 종양이 발생할 수 있으며, 그중 50%는 구개에 발생하는데, 경구개와 연구개의 경계부에, 특히 정중선의 한쪽에 발생하는 경우가 많으며 이는 구개부의 타액선 분포와 부합된다⁵⁻⁸⁾.

발현시의 특징적인 소견은 타액 분비에는 영향을 미치지 않는 무통성의 결절로 시작되어 그 크기가 거의 증가하지 않거나 매우 느린 성장을 보이며, 촉진시 피부에 고착되지 않는 단단한 종물로 인지된다⁹⁾.

선세포 종양은 단순성 선암, 다형성 선암, 선세포암의 세 가지 형태로 분류되기도 하는데 이중 다형성 선종이 가장 많이 발현되어 전체 타액선양성종양의 90%, 소타액선의 양성종양 중에도 55%를 차지하고 있다¹⁰⁾.

M. anthony 등¹¹⁾의 보고에 의하면 구개부에 발생한 종양은 그 침습 정도에 따라 양성, 국소적 침습형, 전이 가능한 악성의 세가지 형태로 나눌 수 있으며 이중 양성에는 기저세포선종¹²⁾과 다른 불특정한 단형성선종^{7,13)}이 포함되며 다형성선종은 국소적 침습형으로 그 분류를 달리 하였는데, 이는 다형성선종은 피낭화가 불안정하며 적절하지 못한 절제후 국소적 재발경향을 가지기 때문이라고 하였다. 특히 구개에 재발한 경우는 구개공에 침습할 수 있고 두개저에 접근할 수 있어 심각할 수 있음을 경고하였다^{4,14,15)}.

구개부에 발생한 타액선 종양의 진단을 위해서는 CT, MRI 등의 기초적 검사와 생검이 가장 중요한 역할을 하게

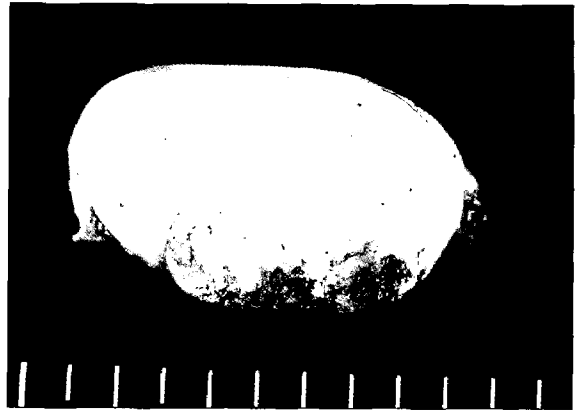


Fig. 6. 절제된 종물의 이등분 단면소견 전형적인 다형성 선종의 단면과 같이 습기 있는 연한황색을 띠는 회백색을 보이고 있다.

되는데 절개생검의 경우 종양세포의 seeding 위험이 따르고¹³⁾ 절제생검을 확진 전에 수행하는 것은 바람직하지 못하므로 병소의 중앙부에 실시하는 punch biopsy나 천자생검이 추천되어 왔다¹⁵⁻¹⁷⁾. 다형성선종의 정확한 진단을 위해서는 생검조직을 절개해보는 것이 필요하다. 종물은 일반적으로 2~5cm의 지름을 가지며 난원형으로 피낭화 되어있고 부드러운 성상을 지닌다. 이등분된 종물의 내면은 습기 있는 열은 황색을 띠는 회백색을 보이며 연골양 조직이 있을 경우는 청색을 띠는 투명한 표면이 관찰되며 낭종형성과 출혈소견도 드물지만 관찰될 수 있다¹⁸⁾(Fig. 6).

다형성선종은 내층의 상피세포와 외층의 근상피세포의 두 종류의 세포가 주류를 이루는데 기질 또한 다형성이어서 유점소, 점액양, 위연골, 초자질 등의 다양한 혼합물로 구성되어 있으며 드물게는 골과 골수가 보여질 수도 있다. Dardick 등¹⁹⁾은 다형성선종의 이러한 광범위한 형태학적 표현은 다음의 몇몇 요소에 기인한다고 하였다.

종양세포에 의해 형성된 점액다당기질의 점액양 간질내의 양과 분포, 편평화생,연골성 또는 골성 화생의 발현, 선관형, 근상피성 특징과 함께 종양세포의 상대적 분포 등이다

다형성선종은 그 상피조직의 분화형태가 선낭포성 악성종양과 유사하나 풍부한 간엽조직을 보이며 인접조직으로의 이환이 적으므로 구분되어 질 수 있으며 근상피세포, 큰 방추세포의 분포로 순수한 간엽조직성 종양과 유사하게 나타날 수도 있으므로 감별을 요하게 된다. Ishii J 등²⁰⁾은 구개부에 발생한 타액선종양의 진단에 있어서 초음파 촬영을 추천하였는데, reinforced posterior wall echo는 압력에 의한 골의 흡수를 나타내고 reinforced posterior echo는 골의 파괴를 나타낸다고 하여 종양의 위치와 상태를 판별하는데 있어서의 유용성을 기술하였다.

치료방법으로는 광범위한 국소적 절제술이 필요한데 확인되는 종양 경계부에서 적어도 0.5cm 확장하여 절제하며 구

개부에 발생한 경우 대개 골파괴는 없으나 골면에 종양세포의 잔사가 남아 있을 가능성이 높으므로 피질골의 표층을 bur로 제거해 주는 것이 좋다. 불안정한 절제의 경우 재발율이 높은 것으로 보고되고 있다²¹⁾. 방사선 치료는 효과가 거의 없는 것으로 알려져 있으나 McEvedy 등²²⁾은 다형성선종의 단순적출 후에도 술 후 방사선조사가 예후를 향상시켰음을 보고하였다.

경구개부의 종양 적출후 노출된 골면은 크지 않을 경우 보통 정상적으로 육아조직화 되나 반대편 경구개에서 대구개신경에 근거한 유경회전피판을 시행함으로 치료될수 있고,

결손부가 클 경우는 혀 또는 측두근의 근육과 근막을 이용한 좀더 광범위한 피판이 요구되어질 수 있다²³⁾. 또한 구개부 종양의 적출후 발생하는 다소 큰 결손부는 외과적 시술 없이 obturator를 이용할 수 있으며 이 경우 술후 재발여부를 알기 용이한 장점이 있다. Egyedi 등²⁴⁾은 구개부 종양의 적출 후 발생하는 결손부를 피판 형성 없이 협지방층의 이식에 의해 성공적으로 치료할 수 있다고 기술하였는데, 이 방법은 인접조직의 희생이나 반흔을 최소화 할 수 있는 장점이 있다.

Spiro 등²⁵⁾은 소타액선 종양 중에는 악성종양이 양성보다 많으며 (50~75%) 소타액선에서 유래한 악성종양 중 악성다형성선종은 10%²⁶⁾~16.8%²⁷⁾ 이었음을 보였는데, 악성다형성선종은 45.5%의 높은 술후 국소재발율을 보였음을 보고하였다. 다형성선종의 악성변화는 3~15%로 다양하게 보고되고 있으며 성장률의 가속화, 촉진시 종양의 불규칙성, 괴사와 동통성 궤양, 안면신경 이환 등의 징후는 악성변화의 가능성을 높인다.

재발 후 종물의 성장을 보인 증례의 25%에서 악성변환이 보고된바 있으므로²⁷⁾ 다형성선종의 수술 후 재발여부는 매우 중요한 사항이다. Foote & Frazell¹⁹⁾은 142증례의 다형성선종 중 4%의 재발율을 보고하였으며 Buxton 등²⁸⁾은 183증례 중 4.7%의 재발율을 보고하였고 이 중 10%가 다시 재발하여 한번 재발 후에는 다시 재발할 가능성이 높아짐을 시사하였다. 소타액선의 경우는 상대적으로 낮은 재발율이 보고되었는데, 재발된 증례가 없었던 연구²⁹⁻³³⁾도 있었으며, Chauthry 등⁶⁾은 29증례 중 3.4%, Frable and Elzay⁵⁾는 42증례 중 4.8% 등이었으며 Ranger 등⁴⁾은 구개에 발생한 8증례의 다형성선종 중 4증례의 재발로 가장 높은 재발율을 보고하였다.

전이는 일반적으로 드물지만, 전이가 일어난 대부분의 증례에서 수술 병력이 있으므로 외과적 술식 중 종양세포의 혈류로의 이동 때문으로 사료되며^{34,35)} 수술시 주의깊은 경계 설정과 섬세한 처치가 요구된다고 할 것이다. 다형성선종에서 유래된 암종은 대부분 조직학적으로 미분화 암종과 선암이며, 이러한 암성변이는 장기간 치료 없이 방치된 종양, 재발된 종양, 1차 수술시 악성요소가 존재한 경우 발생

가능성이 높아지며^{1,36)} 가장 흔한 원발 전이부위는 국소림프절³⁶⁾, 폐³⁷⁾, 골³⁸⁾ 등이다.

IV. 결 론

타액선 종양의 치료를 위해서는 정확한 진단이 필수적이며, 다형성선종의 예후는 그 다양한 조직학적 양태보다는 치료법의 선택과 그 적정성에 좌우된다고 하였으므로⁴⁾ 다형성선종의 확진 시에는 종양 경계의 결정과 적절한 외과적 수술이 필요하며 주기적 내원을 통한 재발 및 악성변화에 대한 관찰이 요구된다.

본과에서는 구개부에 발생한 다형성선종을 완전 적출후 현재까지 재발소견 보이지 않았으며 문헌고찰과 함께 다소의 지견을 얻었기에 보고 드리는 바이다.

참 고 문 헌

1. Shafer, WG, Hine, MK, and Levy, BM : A Textbook of Oral Pathology. 4.ed. W.B.Saunders Co., 1983. 230-235.
2. Eneroth, CM: Classification of parotid tumors. Proc. R.soc.Med., 59: 429-435, 1966.
3. Foote.FW,Jr., and Frazell, EL: Tumors of the major salivary glands. Cancer, 6:1.65-1133, 1953.
4. Ranger D, Thackray AC, Lucas RB: Mucous gland tumors. Br J Cancer 10:1,1956.
5. Frable WJ, Elzay RP: Tumors of minor salivary glands. Cancer 25: 982, 1970.
6. Chauthry AP, Vickers RA, Gorlin RJ: Intraoral minor salivary gland tumors, an analysis of 1414 cases. Oral Surg 14:1194, 1961.
7. Waldron CA, El Mofty SK, Gnepp DR: Tumors of the intraoral minor salivary glands. A demographic and histologic study of 426 cases. Oral Surg 66:323, 1988.
8. Pogrel MA: Tumors of the salivary glands. A histological and clinical review. Br J Oral Surg 17:47, 1979.
9. Brown, JB, McDowell, F, and Fryer, MP: Direct operative removal of benign mixed tumors of analage origin in the parotid lesion. Surg.Gynec. Obstet., 90:257, 1950.
10. Pogrel MA: The management of salivary glands tumors of the palate Oral Surg 52:454, 1994.
11. Pogrel MA: The intraoral basal cell adenoma. J Cranio-Max Fac Surg 15: 372,1987.
12. Campbell JB, Morgan DW, Oates J, et al.: Tumors of the minor salivary glands. Ear Nose Throat J 68:137, 1989.
13. Bardwil JM, Reynolds CT, Ibanez ML, et al.: Report of one hundred tumors of the minor salivary glands.Am J Surg 112:493, 1966.
14. Patey DH, Thackray AC: The treatment of parotid tumors in the light of a pathologic study of parotidectomy material. Br J Surg 45:477, 1958.
15. Kline TS, Merriam JM, Shapshay SM: Aspiration biopsy crytology of the salivary glands. Am J Clin Pathol 76:263, 1981.
16. Jayaram N, Ahim D, Rajwanshi A, Radhika S, Banerjee CK : The value of fine needle aspiration biopsy in the cyto-diagnosis of salivary gland lesions. Diagn Cytopathol 5:349, 1989.
17. Sismanis A, Merriam JM, Kline TS, et al.: Diagnosis of

- salivary gland tumors by fine needle biopsy. *Head Neck Surg* 3:482, 1981.
18. Jong-Woon Ha : Pleomorphic adenomas which occurred in the submandibular gland and hard palate: report of two cases. *대한악안면성형외과학회지* vol.16,no.2,1994.
 19. Dardick, I, van N, P, and Phillips, MJ : Histogenesis of salivary gland pleomorphic adenoma with an evaluation of the role of the myoepithelial cell. *Hum. Pathol.* ,13:62, 1982.
 20. Ishii J, NH, WT, YM, IH, YT, MT, AT : Ultrasonography in the diagnosis of palatal tumors. *Oral Surg Jan*:87(1):39, 1999.
 21. Worthington P: The management of the palatal pleomorphic adenoma. *Br J Oral Surg* 12:132, 1974.
 22. McEvedy BV, Ross WM: The treatment of mixed parotid tumors by enucleation and radiotherapy. *Br J Surg* 63:341, 1976.
 23. Pogrel MA: Inferior hemimaxillectomy for treatment of palatal tumors. *J Oral Maxillofac Surg* 46:85, 1988.
 24. Egyedi, P.: Utilization of the buccal fat pad closure of oro-antral and/or oro-nasal communications. *J. Max.-Fac. Surg.* 5:241, 1977.
 25. Spiro RH, Huvos AG, Strong EW. Malignant mixed tumors of salivary origin. A clinicopathologic study of 146 cases. *Cancer* 39:388-96, 1977.
 26. Ma D., Yu G.: Tumors of the Minor Salivary Glands. *Acta Otolaryngol* 103:325-331, 1987.
 27. State, D.: Superficial lobectomy and total parotidectomy with preservation of the facial nerve in the treatment of parotid tumors. *Surg. Gynec. Obstet.*, 89:237, 1949.
 28. Buxton, RW, Maxwell, JH, and French, AJ.: Surgical treatment of epithelial tumors of the parotid gland. *Surg. Gynecol. Obstet.* 97:401-416, 1953.
 29. Brown, RL, Bishop, EL, and Girardeau, HS: Tumors of the minor salivary glands. *Cancer* 12:40-46, 1959.
 30. Fine, G., Marshall, RB, and Horn, RC.: Tumors of the minor salivary glands. *Cancer* 13:653-669, 1960.
 31. Harrison: A study of ectopic mixed salivary tumors. *Ann. Roy. Coll. Surg. Eng.* 18:99-122, 1956.
 32. Smith, A. G., Broadbent, TR, and Zevalta, AA: Tumors of the oral mucous glands. *Cancer* 7:224-233, 1954.
 33. Studeville, OH, and Corley, RD: Surgical management of tumors of intraloral minor salivary glands. *Cancer* 20:1578-1586, 1967.
 34. El-Naggar AK, Batsakis JG, Kessler S. Benign metastatic mixed tumors or unrecognized salivary carcinomas? *J Laryngol Otol* 102:810-812, 1988.
 35. Gnepp DR. Malignant mixed tumors of the salivary glands: a review. *Pathol Ann* 28:279-328: 1993.
 36. Livolsi, VA, and Perzin, KH: Malignant mixed tumor arising in salivary glands. *Cancer*, 39:2209, 1977.
 37. Landolt, V, Zobeli, L, and Pedic, G. : Pleomorphic adenoma of the salivary glands metastatic to the lung: Diagnosis by fine needle aspiration cytology. *Acta. Cytol.*, 34:101, 1990.
 38. Fine, G, and Marshall, RB : Malignant mixed tumors of parotid gland. *Am. J. Surg.*, 102:86, 1961.

저자연락처

우편번호 139-707
 서울시 노원구 상계7동 761-1
 상계백병원 치과/구강외과
 이 창 진

원고 접수일 1999년 12월 13일
 게재 확정일 1999년 12월 24일

Reprint requests

Chang-Jin Lee
 Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, Sanggye Paik Hospital, Inje Univ.
 761-1, Sanggye-7Dong, Nowon-Gu, Seoul, 139-707, Korea.
 Tel. 82-2-950-1161~2

Paper received 13 December 1999
 Paper accepted 24 December 1999