

## 이하선 천엽에 발생한 상피-근상피암종의 치험례

진선미 · 유현호 · 류석환 · 신동윤 · 황희성 · 김철훈 · 김복주  
동아대학교 의료원 치과 구강악안면외과

**Abstract** (J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011;37:505-9)

### Epithelial-myoeplithelial carcinoma on the superficial lobe of the parotid gland: a case report

Sun-Mi Jin, Hyun-Ho Ryu, Seok-Hwan Ryu, Dong-Yoon Shin, Hie-Sung Hwang, Chul-Hoon Kim, Bok-Joo Kim  
*Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Dentistry, Dong-A University Medical Center, Busan, Korea*

Epithelial-myoeplithelial carcinoma (EMC) is a low-grade malignant salivary gland neoplasm that was first described in 1972. EMC occurs in the older age group, there is a female predilection and mainly involves the parotid gland. Most authors recommend superficial parotidectomy as a treatment for low-grade malignant tumor in the superficial lobe of parotid gland. The treatment of epithelial-myoeplithelial tumors typically includes surgical excision aimed at achieving a R0 resection. This paper reports a case of EMC of the parotid gland treated only by a conservational surgical excision. The lesion was exposed by the retromandibular approach and detached. After the parotid gland envelop was exposed, the mass was observed and was easy to remove due to capsulation. The preoperative diagnosis was a pleomorphic adenoma on the left parotid gland. The tumor was removed surgically with a conservative extracapsular dissection. The postoperative diagnosis was EMC, so superficial parotidectomy or radiation therapy was considered. Nevertheless, the patient was observed and no additional treatment was attempted because the patient was old and a successfully excision of the tumor had been achieved.

**Key words:** Epithelial-myoeplithelial carcinoma, Parotid gland

[paper submitted 2011. 6. 2 / revised 2011. 8. 30 / accepted 2011. 10. 12]

## I. 서 론

상피-근상피 암종은 모든 타액선 종양의 1-5%를 차지하는 매우 드문 종양으로 80%가 이하선에 발생한다<sup>1</sup>. 상피-근상피 암종은 대부분 60-70대 노년층에서 발생하며 주로 여성에서 호발한다<sup>1</sup>. 상피-근상피암종은 동통성 또는 무증상으로 장기간에 걸쳐 서서히 성장하고, 분엽화되고 잘 경계된 단단하고 견고한 하나의 덩어리며 직경은 2-8 cm 정도이다<sup>2</sup>.

상피-근상피 암종은 조직학적으로 clear cell이 포함되어 처음에는 clear cell adenoma나 adenomyoeplithelioma로 간주되었다<sup>3,4</sup>. 그러나 1972년 Donath 등<sup>5</sup>이 종양의 근상피 세포를 발견하고 상피-근상피 암종으로 처음 명명하였다. 1991년 World Health Organization (WHO)에서 상피-근상

피 암종은 선암종 중 하나의 독립된 종양으로 분류되었고 악성도가 낮은 매우 드문 타액선의 신생물로 정의되었다<sup>1</sup>.

상피-근상피 암종을 다룬 거의 대부분의 증례에서 그것의 병적인 특징에 초점을 맞추고 있다. 상피-근상피 암종에 대한 진단 정보를 얻기 위한 전산화단층촬영술(computed tomography, CT)나 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI), 양전자방출단층촬영술(positron emission tomography, PET)의 영상적 특성은 아직 확립되지 않았으며 따라서 술 전의 방사선 사진만으로는 진단에 한계가 있다<sup>6</sup>.

상피-근상피 암종의 일반적인 치료는 잔류암이 남아있지 않도록 외과적으로 절제하는 것이다<sup>7</sup>.

이번 증례는 다형선종으로 오인된 이하선에 발생한 상피-근상피 암종을 이하선의 실질조직을 보존하면서 종양만 제거한 증례이다.

### 김복주

602-103 부산시 서구 동대신동 3가 1번지  
동아대학교 의료원 치과 구강악안면외과

### Bok-Joo Kim

*Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Dentistry,  
Dong-A University Medical Center  
Dongdaeshin-dong 3-1, Seo-gu, Busan 602-103, Korea  
TEL: +82-51-240-5470 FAX: +82-51-241-5475  
E-mail: samehope@naver.com*

## II. 증례보고

76세 여환이 좌측 하악 우각부의 종창을 주소로 동아대 병원 구강외과에 내원하였다. 약 2년 전부터 좌측 볼 주위에 덩어리가 만져졌으나 별다른 증상이 없어 특별한 검



**Fig. 1.** Facial view illustrating the 3-4 cm swelling on patient's left cheek.

Sun-Mi Jin et al: Epithelial-myoepithelial carcinoma on the superficial lobe of the parotid gland: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011

사를 하지 않은 채로 지내다가 점점 크기가 커져 안모에 영향을 미칠 만큼 크기가 커지고 주변으로 퍼져나가는 느낌이 들어 검사 및 치료를 위해 내원하였다. 환자는 당뇨로 약물복용 중이었으며 다른 전신질환은 없었다. 가족력은 특이사항이 없었다. 병소는 좌측 하악 우각 부위의 피부 하방에 임상적으로 크기 3-4 cm 정도의 유동성과 경결감이 있는 덩어리이며 림프절의 종창이나 안면신경 손상의 징후는 나타나지 않았다.(Fig. 1) CT 상 병소는 피부와 이하선의 천엽 사이에 위치하였고 경계가 명확하였으며 이하선 실질조직보다는 밀도가 높으나 비교적 균일한 밀도를 보였다.(Fig. 2)

술 전 임상적, 방사선학적으로 이하선의 다형선종으로 가진단하였다. 병소는 후하악접근법으로 피부절개 후 조직을 박리하여 이하선 피막을 노출시켰다. 피막화된 종양을 쉽게 발견하였으며 이하선 천엽의 실질조직을 조심스럽게 둔박리하여 피막을 손상시키지 않고 종양 내부 내용물의 누출 없이 종양을 적출하였다. 종양은 하나의 덩어리로 주변조직과 쉽게 분리되었으며 환자 나이를 고려하여 이하선



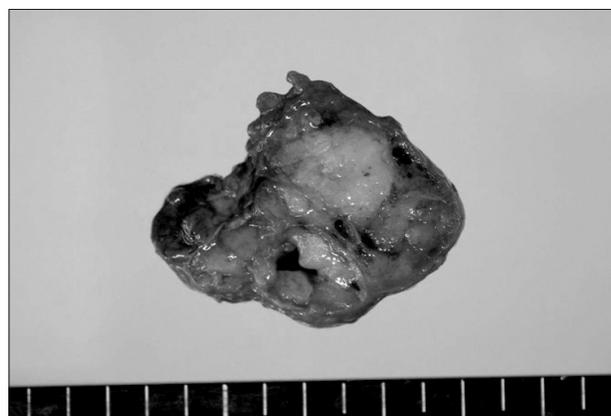
**Fig. 2.** Computed tomography (CT) scan. A. Transverse view of CT scan. B. Coronal view of CT scan.

Sun-Mi Jin et al: Epithelial-myoepithelial carcinoma on the superficial lobe of the parotid gland: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011



**Fig. 3.** Macroscopic view (external) shows well-circumscribed, thinly encapsulated mass with soft consistency.

Sun-Mi Jin et al: Epithelial-myoepithelial carcinoma on the superficial lobe of the parotid gland: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011



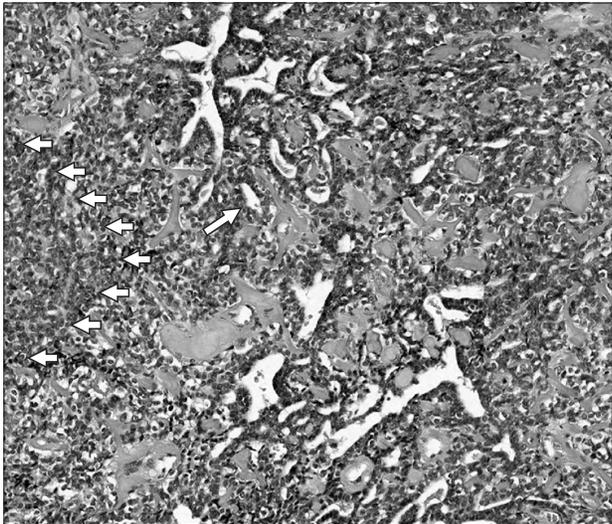
**Fig. 4.** Macroscopic view (cross section) shows a relatively well defined grayish white soft tissue mass with focal cystic change on sectioning. The tumor is confined to the gland.

Sun-Mi Jin et al: Epithelial-myoepithelial carcinoma on the superficial lobe of the parotid gland: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011

천엽은 제거하지 않았다. 층별로 봉합 시행 후 압박 드레싱을 시행하였다. 수술 후 평가에서 감각이상이나 운동이상 은 나타나지 않았다.

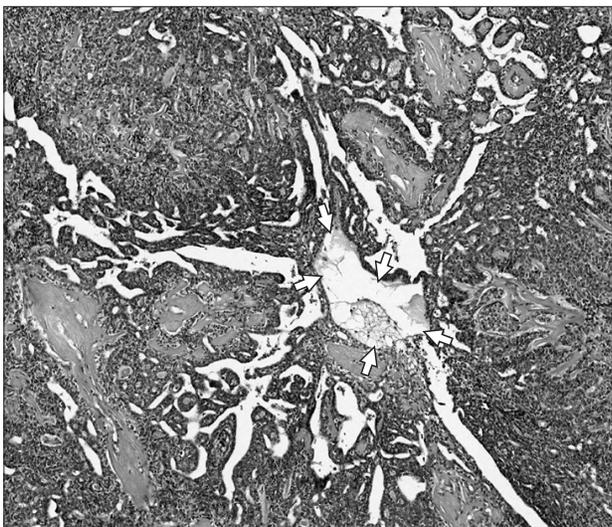
제거된 종양은 직경이 3-4 cm로 나타났으며 경계가 명확하고 얇은 피막으로 둘러싸여 있었다.(Figs. 3, 4)

조직은 haematoxinin-eosin (H&E)으로 염색 후 40배율 및 100배율로 각각 관찰하였다. H&E 100배율 조직사진에서



**Fig. 5.** Microscopic view (H&E staining, ×100). The parotid gland mass is composed of double layered tubules and solid area of clear cells (short arrows). The tubules are lined by inner cuboidal cells with eosinophilic cytoplasm and outer layer of clear, myoepithelial type cells (long arrow).

*Sun-Mi Jin et al: Epithelial-myoepithelial carcinoma on the superficial lobe of the parotid gland: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011*



**Fig. 6.** Microscopic view (H&E staining, ×40). The tumor also shows cystic area with papillary fronds (arrows).

*Sun-Mi Jin et al: Epithelial-myoepithelial carcinoma on the superficial lobe of the parotid gland: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011*

종양은 두 층의 세포로 구성된 관상조직과 투명세포로 구성된 관상의 조직소견이 관찰되었고(Fig. 5), H-E 40배율 조직사진에서는 종양의 양성변화와 유두상 조직이 관찰되었다.(Fig. 6)

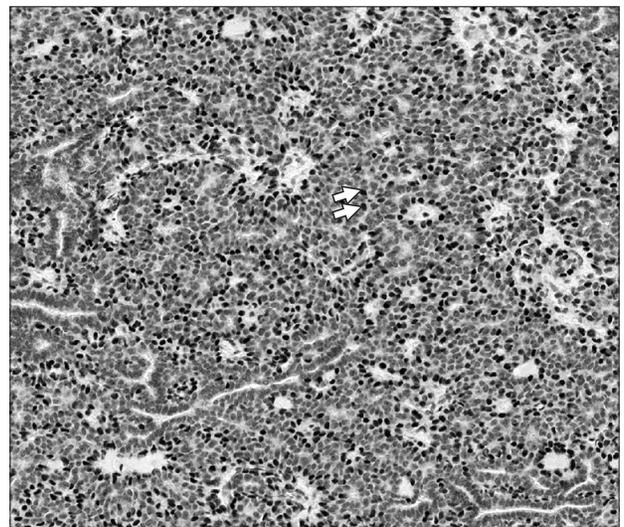
또한 p63 면역조직화학검사에서 관상조직의 바깥층이 근상피 세포라는 것이 확인되었다.(Fig. 7)

### III. 고 찰

타액선 종양은 두경부 종양 중 약 3%를 차지하고, 이중 75-88%가 이하선에서 발생한다<sup>8</sup>. 타액선의 종양은 조직학적으로 다양하지만 흔한 이하선 종양은 pleomorphic adenomas, myoepitheliomas, basal cell adenomas, oncocytomas, 그리고 Wharthin tumors이다. 악성종양은 18가지 암종으로 분류되는데(WHO Classification, 2005) mucoepidermoid carcinoma와 acinic cell carcinoma가 가장 흔하고, 상피-근상피암종은 매우 드물다.

타액선 종양은 전형적으로 무통성으로 느리게 성장하며 크기가 어느 정도 커진 뒤에야 임상적으로 발견하게 된다. 타액선 종양의 진단방법으로는 병력조사와 촉진 등의 임상 검사 외에 흡인생검법, 초음파검사, CT, MRI 등이 있으며 이 중 흡인생검법은 정확도가 74-88% 정도에 불과하여 정확한 진단이 어렵지만 악성종양이 의심되는 환자에서 유용하다<sup>9</sup>.

타액선 종양은 방사선 영상만으로는 양성인지 또는 악성인지 감별하는 것은 제한이 있다. 양성 종양으로 감별하는 주요한 형태학적 특성은 피막화되어 있고, 초음파와 MRI 상에서 균일한 양상을 보이고, 국소 림프절병소가 없는 것이다<sup>10</sup>.



**Fig. 7.** The immunohistochemical stain confirms the outer layer of tubules are lined by p63 positive myoepithelial cells (arrows) (anti-p63 immunohistochemistry, ×100).

*Sun-Mi Jin et al: Epithelial-myoepithelial carcinoma on the superficial lobe of the parotid gland: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011*

석회화되어있는 것도 양성종양의 또 다른 특성이다<sup>10</sup>. 악성 종양의 양상은 일정하지 않은데 많은 악성 타액선 종양이 위막을 가지고, 불규칙한 형태와 주변으로 침투하는 경향이 있다<sup>10</sup>. 그러나 low-grade의 악성종양의 경우 때때로 술전에 양성종양으로 오진되어 부적절한 수술기법이 이용될 수 있고 결과적으로 국소적인 재발이나 나쁜 예후를 가져올 수 있다<sup>1</sup>.

CT는 특히 종양의 진단에 효과적이며 내인성과 외인성 종양의 감별 및 인접조직으로의 침투 양상을 평가하는 데 매우 유용하다<sup>10</sup>. 타액선의 양성 종양은 대개 병소의 경계가 명확하고 정상 타액선 조직보다 밀도가 높게 나타나며 일반적으로 균일한 밀도를 보이는데 악성도가 낮은 악성종양도 동일한 소견을 보일 수 있다<sup>10</sup>. 반면에 악성도가 높은 악성종양이나 재발한 악성종양은 정상타액선 조직보다 밀도가 높게 나타나지만 대개 병소의 경계가 불명확하며 병소의 밀도도 균일하지 않다<sup>10</sup>.

그러나 이러한 감별 지침은 예외적인 경우가 많기 때문에 방사선적 형태만 보고 타액선 종양을 감별하는 것은 매우 제한적이다. 따라서 타액선 종양의 진단에는 조직 생검이 절대적이라고 할 수 있다.

상피-근상피암종의 조직 발생은 타액선의 개재도관에서 유래된다<sup>11</sup>. 조직학적으로 전형적인 상피-근상피암종은 inner ductal cells의 double-cell lining과 outer clear myoepithelial cells이다<sup>12</sup>. 면역조직학적으로는 정상적인 개재도관과 증식된 개재도관의 clear myoepithelial cell이 smooth muscle specific actin과 S-100 protein, 그리고 cytokeratin에 면역반응성을 나타낸다<sup>13</sup>.

이번 증례에서는 수술 전 임상적으로나 방사선학적으로 다형선종을 가장 우선으로 가진단하였고 수술도 양성종양에 준하여 가장 보존적인 방법으로 extracapsular dissection을 이용하여 피막화된 종양만 제거하고 이하선 천엽 절제술을 시행하지 않았다. 그러나 조직생검을 통하여 상피-근상피 암종으로 최종 진단되었다.

Deere 등<sup>14</sup>은 타액선에 발생한 상피-근상피암종의 국소재발률이 42%이고 다른 부위로의 전이도 10% 관찰된다고 하였다.

이하선 종양이 재발하는 원인은 종양의 제거과정 중 피막이 파괴되어 종양세포가 인접조직으로 파급되는 경우, 이하선 심층엽에 발생한 종양이 후하악부위까지 확산되어 있는 경우, 외과적 적출술이 부적절한 경우 등이 있다<sup>9,15</sup>.

상피-근상피 암종은 상대적으로 악성도가 낮고, 분화도가 높아 저등급의 악성종양으로 분류되며 예후가 좋다. 악성도가 낮고 크기가 4 cm 이하이며 종양이 이하선 천엽에 위치하는 것을 고려하였을 때, Harish에 의해 추천되는 치료는 이하선 천엽의 절제술이다<sup>16</sup>. 추가적인 방사선치료나 항암화학요법은 필요하지 않다<sup>16</sup>.

2005년 Lim 등<sup>17</sup>의 연구에서는 이하선의 암종이 천층엽

에 국한되고 안면신경과 연관되지 않은 저등급의 암종인 경우 보존적 이하선 절제술을 시행한 후에 방사선 치료를 병행하는 것이 합병증을 최소화하고, 재발률을 줄일 수 있는 치료방법이라고 추천하였다.

그러나 이하선의 종양에 대한 치료방법에는 아직 명확한 지침이 없으며 종양의 형태나 악성도에 따라 다양한 것으로 알려져 있다. 이번 증례에서는 조직 검사에서 종양 세포가 피막 내부로 국한되어 있으며, 수술 시 종양이 한 덩어리로 잘 제거되었고, 환자의 전신 상태와 고령임을 고려하여 추가적인 수술이나 치료는 시행하지 않고 경과 관찰하기로 하였다.

또한 상피-근상피 암종의 경우 일반적으로 외과적으로 R0 margin으로 절제하는 것이 일반적인 치료법이며<sup>7</sup>, 이번 증례에서는 피막화된 종양 외부로 종양세포가 누출되지 않은 점을 고려하면, 안면신경 손상 등의 합병증을 유발할 수 있는 이하선의 천엽절제술을 추가적으로 시행하지 않는 것이 가장 보존적인 치료방법이라 판단되었다.

수술 전 임상검사 및 방사선 검사로 다형선종 등의 양성 종양으로 가진단하여 종양의 외과적 절제술만 시행한 뒤, 조직검사를 통해 악성종양인 상피-근상피 암종으로 최종 진단한 이번 증례를 통해 이하선 종양의 수술 전 세침 흡인 생검(fine needle aspiration biopsy) 등의 다양한 진단방법을 이용하여 신중하게 가진단하는 것이 중요하며, 수술 시에는 피막화된 종양의 세포가 주위 조직으로 누출되지 않도록 세심한 절제가 필요하다고 생각된다.

이번 증례는 악성종양으로 진단 후에도 추가적으로 이하선 천엽절제술이나 방사선 치료를 시행하지 않고 보존적으로 치료를 마친 경우로, 5개월이 지난 현재까지 별다른 합병증과 재발의 징후는 보이지 않고 있다.

## References

1. Seifert G, Sobin LH. Epithelial-myoepithelial carcinoma. In: WHO. World Health Organization International Classification of Tumors: Histological Typing of Salivary Gland Tumors. 2nd ed. Berlin: Springer-Verlag; 1991:23-4.
2. Dorothy MP. Surgical Pathology and Fine Needle Aspiration Cytopathology. In: John EN, Mark MG, eds. Color Atlas and Text of the Salivary Glands. 1st ed. Barcelona: Mosby-Wolfe; 1995:78.
3. Suksela E, Tarkkanen J, Wartiovaara J. Parotid clear cell adenoma of possible myoepithelial origin. Cancer 1972;30:742-8.
4. Bauer WH, Fox RA. Adenomyoepithelioma (Cylindroma) of palatal mucous glands. Arch Pathol 1945;39:96-102.
5. Donath K, Seifert G, Schmitz R. Diagnosis and ultrastructure of the tubular carcinoma of salivary gland ducts. Epithelial-myoepithelial carcinoma of the intercalated ducts. Virchows Arch 1972;356:16-31.
6. Yamada H, Kawaguchi K, Yagi M, Morita Y, Mishima K, Uno K, et al. Epithelial-myoepithelial carcinoma of the submandibular gland with a high uptake of 18F-FDG: a case report and image diagnosis. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2007;104:243-8.
7. Kokemueller H, Swennen G, Brueggemann N, Brachvogel P,

- Eckardt A, Hausamen JE. Epithelial malignancies of the salivary glands: clinical experience of a single institution-a review. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2004;33:423-32.
8. Baek S, Ha JW, Oh HK, Ryu SY, Kim WJ. A clinical study on the parotid gland tumors. *J Korean Assoc Maxillofac Plastic Reconstructive Surg* 2002;24:398-405.
  9. Woods JE, Chong GC, Behrs OH. Experience with 1,360 primary parotid tumors. *Am J Surg* 1975;130:460-2.
  10. Park TW, Lee SL, Kim JD, Park CS, Choi SC, Ko KJ, et al. *Oral and Maxillofacial Radiology*. 3rd ed. Seoul: Narae Publishing; 2001:476-7.
  11. Colio RL, Sciubba JJ, Brannon RB, Batsakis JG. Epithelial/myoepithelial carcinoma of intercalated duct origin. A clinicopathologic and ultrastructural assessment of sixteen cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1982;53:280-7.
  12. Cheung FM, Hioe F, Kong JH. Histologic variant of the epithelial/myoepithelial carcinoma of the salivary gland: a case report. *Head Neck* 1995;17:437-44.
  13. Di Palma S. Epithelial/myoepithelial carcinoma with co-existing multifocal intercalated duct hyperplasia of the parotid gland. *Histopathology* 1994;25:494-6.
  14. Deere H, Hore I, McDermott N, Levine T. Epithelial-myoeplithelial carcinoma of the parotid gland: a case report and review of the cytological and histological features. *J Laryngol Otol* 2001;115:434-6.
  15. Spiro RH, Huvos AG, Strong EW. Cancer of the parotid gland. A clinicopathologic study of 288 primary cases. *Am J Surg* 1975;130:452-9.
  16. Harish K. Management of primary malignant epithelial parotid tumors. *Surgical Oncol* 2004;13:7-16.
  17. Lim YC, Lee SY, Kim KB, Lee JS, Koo BS, Shin HA, et al. Conservative parotidectomy for the treatment of parotid cancers. *Oral Oncol* 2005;41:1021-7.