

제5수지에 발생한 공격성 수지 유두상 선종

A Case of Aggressive Digital Papillary Adenoma of the Fifth Finger

김철홍 · 김보건 · 강정모 · 김대철*

동아대학교 의과대학 정형외과학교실, *병리학교실

공격성 수지 유두상 선종(aggressive digital papillary adenoma)은 에크린 한선에서 기원하는 국내에서 매우 드문 한선종이다. 저자들은 제5수지에서 발생한 공격성 수지 유두상 선종 1예를 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

색인단어: 제5수지, 공격성 수지 유두상 선종

'공격성 수지 유두상 선종(aggressive digital papillary adenoma)'은 드문 한선종(hidradenoma)으로 1979년 Helwig에 의해 처음 서술되었으며,¹⁾ 조직학적으로 유두상 에크린 한선종(papillary eccrine adenoma)과 유사하나, 하지 및 체간에 호발하며 양성 경과를 보이는 유두상 에크린 한선종과는 달리 주로 말단 부위, 즉 손, 발(손가락, 발가락)에 호발하며²⁾ 국소 재발 및 원격 전이 발생률이 높은 특징을 보여 공격성 수지 유두상 종양(aggressive digital papillary tumor)으로 불리게 되었으며 이후 Kao 등³⁾에 의해 1987년 보고된 바 있다. Duke 등⁴⁾에 의해 상순(upper lip), 이륜(ear helix) 등의 부위에도 공격성 수지 유두상 종양과 유사한 조직학적 소견을 보이는 종양에 대해 기술되었고, 공격성 수지 유두상 종양은 주로 말단 부위에 발생하나 이와 유사한 조직학적 소견을 보이는 종양은 다른 신체 어느 부위에서나 발생 가능하다고 하였다. 이 공격성 수지 유두상 종양은 비특이적이지만 임상적으로 수개월에서 수년에 걸쳐 크기 증가를 보이는 수지의 진피 내에 결절 형태를 보이는 것이 전형적인 양상이다.^{3,4)} 조직학적으로는 섬유성 교원질의 기질과 내강 내 판포상(tubuloalveolar) 또는 관상(tubular) 구조를 보이며, 국소적 편평 상피 화생(squamous metaplasia) 소견이 관찰된다.³⁾ 공격성 수지 유두상 선종은 선암종과 구별을 하는 것이 직접적인 임상적 치료와 예후를 파악하기 위해 중요하다

며, 조직학적 감별이 어려워 임상적 추적 관찰이 중요하다.^{3,4)} 저자들은 40세 여자의 제5수지에서 발생한 공격성 수지 유두상 선종 1예의 치료경험을 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례보고

40세 여자 환자로 약 10년 전 좌측 제5수지의 배측에 발생한 무통성 피하 결절로 지역 병원에서 흡입 천자술을 시행한 병력이 있으며 이후 암청색(dark blue)으로의 색깔 변화 및 점진적 크기 증가 소견을 보여 내원하였다. 본원 외래 내원 후 시행한 이학적 검사상 좌측 제5수지의 근위지간 관절의 배측에 고정된 결절 형태를 띠는 암청색의 약 1×1 cm의 부드러운 종물이 촉지되었으며 정도의 압통 소견을 보였으나 관절운동 범위 제한은 없었다. 또한 환자의 과거 병력상 가족력 등의 특이 소견도 관찰되지 않았다.

근골격계 초음파 영상에서는 좌측 제5수지 근위지간 관절 신전건 위에 경계가 뚜렷한 낭종성 종괴(well-marginated cystic mass) 소견이 관찰되었다(Fig. 1). 지간 마취 후 수술을 시행하였으며, 제5수지 근위지간 관절 배측에 황형의 피부 절개를 한 후 종물을 노출시켰다. 종물은 주변 조직과 뚜렷한 경계를 이루는 낭종성 형태를 보였으며, 낭종성 종물 및 외막에 대하여 변연 절제술(marginal excision)을 시행하였다. 절제된 종양 내에는 장액성이고 암갈색 액(serous and dark brown-colored fluid)이 관찰되었다(Fig. 2). 수술 이후 환자의 제5수지 관절운동은 정상 소견을 보였다. 조직검사상 진피 내에 비교적 경계가 잘 지어진 낭종성 구조를 보이며, 유두상 돌기 모양의 확장된 관으로 구성되어 있

접수일 2012년 2월 25일 수정일 2012년 6월 13일

게재확정일 2012년 7월 16일

교신저자 김보건

부산시 서구 대신공원로 26, 동아대학교 의과대학 정형외과학교실

TEL 051-240-5167, FAX 051-243-6757

E-mail cusem9@daum.net

었고 비정상적인 유사 분열은 보이지 않아 공격성 수지 유두상 선종으로 확진되었고(Fig. 3), 수술 후 1년이 경과한 상태로 외래를 통한 추시 관찰 중이며, 재발 소견은 없었다.



Figure 1. Ultrasonography shows the case of aggressive digital papillary adenoma of the fifth finger dorsum area. Well margined cystic mass is attached at the 5th finger extensor tendon area.

고 찰

'공격성 수지 유두상 선종'은 Duke 등⁴⁾의 연구에 의하면 평균 발생 연령은 52세이고, 여성보다 남성에서 약 9배 가량 많이 발생하였다. 가장 흔한 발생 부위는 손(85%)이었으며, 발에서 15%, 발가락에서 9%가 발생하였다. 이 중 79%에서 손가락에서 발생하였으며, 가장 흔한 침범 부위는 손가락 수장측 말단부였다. 선종의 크기는 평균 1.7 cm였으며 평균 유병기간은 29개월이었다.⁴⁾ 임상적으로 병변은 비특이적이지만 주로 손가락, 발가락에 호발하고 고립성 피하 결절로 발생한다.³⁾ 종종 압통성으로 변화하기도 하고, 궤양성 또는 출혈성 경향을 보이기도 하지만 관절운동 범위 감소 소견이나 신경 혈관계를 침범하는 경우는 드물다.³⁾

공격성 수지 유두상 선종의 병인은 불확실하며, 이 종양의 발생 빈도가 낮아 현재까지 많은 연구가 시행되지 않았다. 본 증례는 40세 여성에서 발생한 좌측 제5수지의 근위지간 관절 배측에 발생한 무통성 피하 결절로 이 질병을 유발할 만한 외상력, 가족력, 기존 피부 병변 등 특이 병력은 없었다.

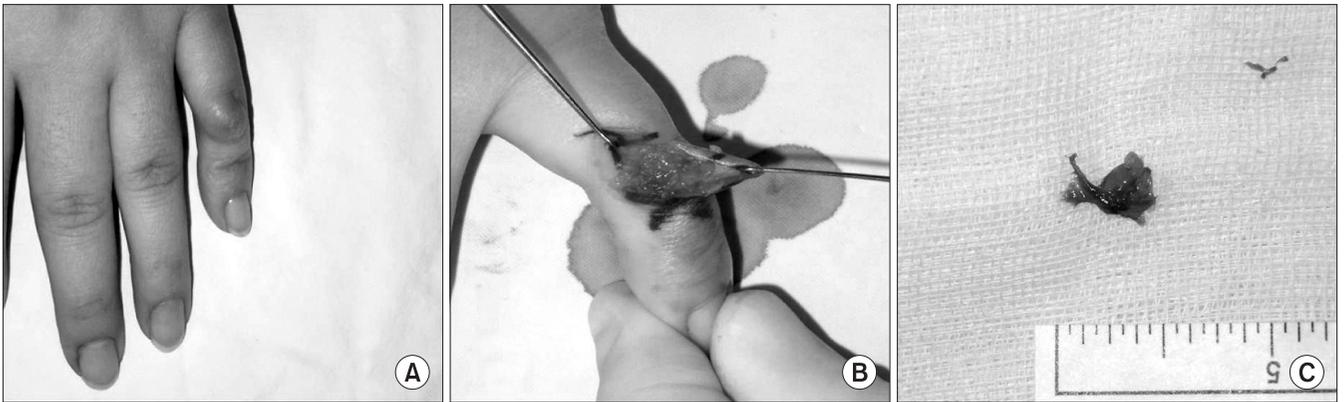


Figure 2. Clinical photographs. (A) Tumor in the left fifth finger of the patient. (B) Intra-operative view of the cystic mass. (C) Photograph after excision of the mass.

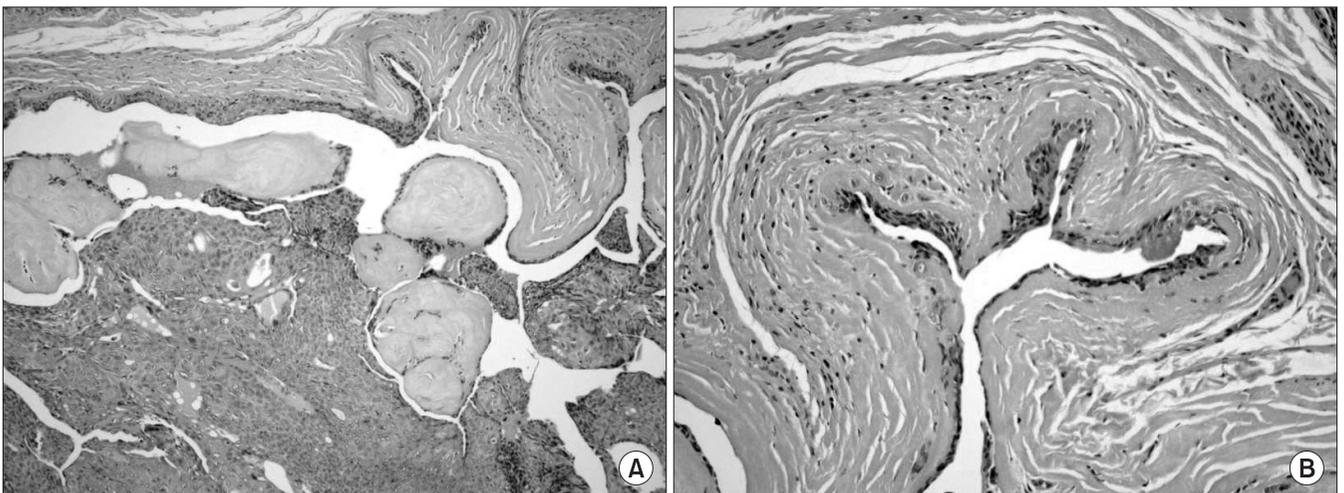


Figure 3. Microscopic findings of dermal nodule show cystic tumor with papillary projections (H&E stain; A: $\times 100$, B: $\times 200$).

공격성 수지 유두상 선종은 조직학적으로 관내강 내로 유두상 돌기 소견과 선상 분화(glandular differentiation)를 보이기 때문에 유두상 에크린 한선종(papillary eccrine adenoma) 및 에크린 선단 공한선종(eccrine acrospiroma)과 감별 진단이 필요하다.^{3,5)} 그러나 유두상 에크린 한선종과 에크린 선단공한선종에서 보이는 '산재된 다수의 관상 구조'가 보이는 것과 달리 공격성 수지 유두상 선종은 '복잡한 관포상 형태'와 '다양한 낭성 구조'가 있다.³⁾ 공격성 수지 유두상 선종은 유두상 에크린 한선종과 유사한 두 층의 세포로 이루어진 관과 같은 구조가 있지만, 유두상 에크린 한선종보다 관상 구조는 더 크고 확장되어 있다.⁶⁾ 본 증례는 조직학적 소견상 진피 내에 비교적 경계가 잘 지어진 낭종성 구조로 관포상, 유두상 모양이 혼합된 다양한 크기의 관으로 구성되어 있었고 비정상적인 유사 분열은 보이지 않아 공격성 수지 유두상 선종으로 진단하였다. 관내강에는 과립성의 호산성 물질이 관찰되었고, H&E 염색에 양성 반응을 보였다(Fig. 3).

공격성 수지 유두상 선종과 공격성 수지 유두상 선암종은 조직학적 연속선상에 있으므로 조직학적 감별이 중요하다. 악성을 시사하는 조직학적 소견들로는 불완전한 선상 분화, 세포의 비정형성과 다형성, 괴사, 혈관 및 골, 연조직 침범 등이 있다.⁶⁾ 공격성 수지 유두상 선암종은 피하조직으로 종양세포가 침윤하는 공격적인 특징 때문에 높은 재발률을 가지고 있어 임상적으로 완전한 절제가 어렵다.³⁾ 그러므로 임상적 치료와 예후를 결정하기 위해서는 공격성 수지 유두상 선종과 선암종의 감별이 중요하나, 조직학적, 임상적 진단 기준만으로 양성이라고 정확히 예측할 수 없고 전이 가능성이 있으므로 수지 및 족지의 유두상 선종을 악성으로 분류해야 한다는 주장도 있다.⁷⁾ 또한 종양 증식 표지자인 Ki-67 및 p53 항원의 음성 유무를 확인을 통하여 악성화의 가능성을 판단하는 것이 도움이 되지만,⁸⁾ 본 증례에서는 시행하지 않았으며, 수술 후 재발 및 국소 침윤, 원격 전이 소견은 보이지 않았다.

공격성 수지 유두상 선종에서 치료의 원칙은 아직 정해진 바가 없으나 Duke 등,⁴⁾ Singla와 Shearin⁹⁾에 의하면 종양의 근치적 절제술(radical excision)이 필요하며, 전이가 발생하는 경우도 있기 때문에 절단술을 고려할 정도의 공격적인 치료가 필요하다고 하였으며, 폐전이 유무를 확인하기 위해 흉부방사선검사가 정기적으로 필요하다고 하였다. 또한 Malafa 등¹⁰⁾에 의하면 공격성 수지 유두상 선종 환자의 반 이상에서 구역 림프절(regional lymph node) 침범이 발견되었으며 구역 림프절 절제 및 감시 림프절(sentinel lymph node) 검사를 통해 보조항암요법의 필요 유무를 확인하여야 한다고 하였다.

결론적으로 공격성 수지 유두상 선종은 원격 전이와 국소 재발률이 높기 때문에 수술적 치료 시에 주의를 요하며 장기적이고 세밀한 임상적 추적 관찰이 필요하다. 본 증례는 제거 1년째 재발 소견은 보이지 않고 있으나, 재발 및 전이 여부 확인을 위해 정기적인 흉부방사선검사를 포함하여 외래를 통한 주기적 경과관찰 중이다.

참고문헌

1. Helwig EB. Eccrine acrospiroma. *J Cutan Pathol.* 1984;11:415-20.
2. Mori O, Nakama T, Hashimoto T. Aggressive digital papillary adenocarcinoma arising on the right great toe. *Eur J Dermatol.* 2002;12:491-4.
3. Kao GF, Helwig EB, Graham JH. Aggressive digital papillary adenoma and adenocarcinoma. A clinicopathological study of 57 patients, with histochemical, immunopathological, and ultrastructural observations. *J Cutan Pathol.* 1987;14:129-46.
4. Duke WH, Sherrod TT, Lupton GP. Aggressive digital papillary adenocarcinoma (aggressive digital papillary adenoma and adenocarcinoma revisited). *Am J Surg Pathol.* 2000;24:775-84.
5. Maiorana A, Nigrisoli E, Papotti M. Immunohistochemical markers of sweat gland tumors. *J Cutan Pathol.* 1986;13:187-96.
6. Sexton M, Maize JC. Papillary eccrine adenoma. A light microscopic and immunohistochemical study. *J Am Acad Dermatol.* 1988;18:1114-20.
7. Jih DM, Elenitsas R, Vittorio CC, Berkowitz AR, Seykora JT. Aggressive digital papillary adenocarcinoma: a case report and review of the literature. *Am J Dermatopathol.* 2001;23:154-7.
8. Pfister C, Moore L, Allard P, et al. Predictive value of cell cycle markers p53, MDM2, p21, and Ki-67 in superficial bladder tumor recurrence. *Clin Cancer Res.* 1999;5:4079-84.
9. Singla AK, Shearin JC. Aggressive surgical treatment of digital papillary adenocarcinoma. *Plast Reconstr Surg.* 1997;99:2058-60.
10. Malafa MP, McKesey P, Stone S, Dudley-Walker S, Cockerell CJ. Sentinel node biopsy for staging of aggressive digital papillary adenocarcinoma. *Dermatol Surg.* 2000;26:580-3.

A Case of Aggressive Digital Papillary Adenoma of the Fifth Finger

Chul Hong Kim, M.D., Bo Kun Kim, M.D., Jung Mo Kang, M.D., and Dae Cheol Kim, M.D.*

*Departments of Orthopedic Surgery, *Pathology, College of Medicine, Dong-A University, Busan, Korea*

Aggressive digital papillary adenoma is a rare neoplasm of eccrine sweat gland origin. We report a case of aggressive digital papillary adenoma of the fifth finger, together with a literature review.

Key words: fifth finger, aggressive digital papillary adenoma

Received February 25, 2012 **Revised** June 13, 2012 **Accepted** July 16, 2012

Correspondence to: Bo Kun Kim, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, College of Medicine, Dong-A University, 26, Daesingongwon-ro, Seo-gu, Busan 602-715, Korea

TEL: +82-51-240-5167 **FAX:** +82-51-243-6757 **E-mail:** cusem9@daum.net