

□ Roentgenogram of Issue □

악하선 종괴를 동반한 고립성 폐결절

충남대학교 의과대학 내과학교실, 해부병리학교실¹, 이비인후과학교실², 흉부외과학교실³

조해정 · 김진희 · 김주옥 · 송규상¹

남 부 현² · 임 승 팽³ · 김 선 영

= Abstract =

Primary Adenoid Cystic Carcinoma of Salivary Gland with Metastatic to the Lung

Hai Jeong Cho, M.D., Jin Hee Kim, M.D., Ju Ock Kim, M.D., Sun Young Kim, M.D.

Kju Sang Song, M.D.¹, Seung Pyung Lim, M.D.² and Nam Boo Hyun, M.D.³

Department of Internal Medicine, Department of Anatomic Pathology¹,

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery², Department of Otolaryngology³,

Chungnam University College of Medicine, Daejeon, Korea

A 22-year old female visited CNUH due to palpable neck mass. Cytologic examination of a fine needle aspiration was performed and the result was Pap class II. Routine chest x-ray shows solitary pulmonary nodule. For rule-out malignancy, FNA at neck mass was repeated and pathologic finding was dysplasia. She was admitted to MI department for evaluation of solitary pulmonary nodule and percutaneous needle aspiration was done. Pathologic diagnosis was adenoid cystic carcinoma. Thereafter, the lesions were treated by excisional biopsy of submandibular gland mass with left supraomohyoid neck dissection and wedge resection of right lower lobe at ENT department and thoracic and cardiovascular surgery department, respectively. Final diagnosis was adenoid cystic carcinoma arising in submandibular gland with solitary lung metastasis. According to TMN staging system, surgical staging is stage IV of T2N0M1.

Clinical follow-up to postoperative 13 months in this case showed that she is alive and well without evidence of recurrence.

Key Words: Solitary pulmonary nodule, FNA, Adenoid cystic carcinoma

증 례

22세된 여자 환자가 내원 7년 전부터 있어온 좌측 경부 종괴로 내원하였다. 이 종괴는 서서히 성장하는 경향이 있었고, 최근에는 잠에서 깨어날 정도의 동통이 동반

되었으며 진통제의 투약에도 효과가 없어 충남대학교 이비인후과 외래를 방문하였다. 침샘염(sialadenitis), 양성종양의증 추정하에 미세침흡인(fine-needle aspiration)을 시행하였다. 세포진 검사상 Pap Class II의 소견 있었고 이후 촬영한 단순 흉부 X-선 검사상 고립성 폐결절이 있었고 경부 초음파 검사 및 경부와 흉부의 전산

화 단층 촬영후 악성의 가능성을 배제하기 위하여 경부 종괴에 재 미세침흡인을 시행하였으며, 세포진 검사상 Pap Class III이었다. 이 후 폐병변에 대한 평가를 위해 내과로 전과되었고 환자는 경피적 폐침생검(percutaneous needle aspiration & biopsy of lung, PCNA)을 위해 입원하였다.

환자의 직업은 간호조무사로서 흡연 및 음주의 과거력은 없었고 과거력상 특이 사항이 없었으며 가족력상 할아버지가 폐암으로 사망하였다. 1년 전 정기 건강 검진시 단순 흉부 x-선 소견은 정상이었다.

입원 당시 이학적 검사상 생체징후는 혈압 110/70 mmHg, 맥박수 분당 70회, 호흡수 분당 20회, 체온 37.4℃이었으며 의식은 명료하였다. 경부 사진과 촉진상 좌측 악하선 영역에 3×3cm 크기의 경계가 명확한 타원형의 단단하고 고정된 종괴가 있었으며 압통이 동반되었다. 흉부, 복부, 사지 및 신경학적 검사상 특이 소견은 없었다.

말초 혈액 검사상 혈색소 13.4g/dL, 헤마토크릿 40%, 백혈구수 7,500/mm³(분절상 호중구 71.2%, 림프구 24%), 혈소판수 434,000/mm³이었고 혈청 생화학 검사상 Ca 8.7mg/dL, inorganic phosphorus 3.3mg/dL, glucose 103mg/dL, BUN 7.9mg/dL, creatinine 0.6mg/dL, total protein 7.8g/dL, albumin 5.0g/dL, AST 20IU/L, ALT 14IU/L이었고, BT 1min, PT 13.0(12.6)sec, aPTT 31.5(32.7)sec 이었다. ASO < 200IU/ml, CRP는 음성

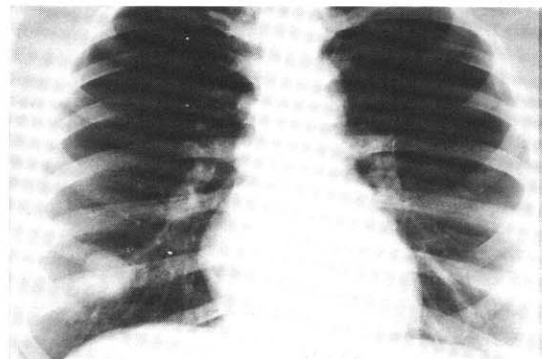


Fig. 1. Chest radiography shows about 2.5×2.0cm sized, well-defined oval shaped solitary pulmonary nodule in right lower lung field.

이었고 적혈구 침강속도는 3mm/hr, AIDS 항체는 음성이었다.

방사선학적 검사상 단순 흉부 X-선 검사상 우측 하폐야에 고립성 폐결절이 있었고(Fig. 1) 경부 초음파 검사상 비균질성 저에코의 종괴가 악하선에 있었고 비교적 변연은 명확하였다. 경부와 흉부의 전산화 단층 촬영상 불규칙하게 조영되는 종괴가 있었으며 우하엽에 고립성 폐 결절이 보였다.(Fig. 2,3)

진 단

고립성 폐 결절에 대하여 진단적 접근을 시도하였다. 기도내 병변을 배제하기 위해 시행한 기관지 내시경상 특이 소견 없었으며 입원 2일째 경피적 폐침생검을 실시하였으며 병리학적으로 세포진 검사상 Pap Class II

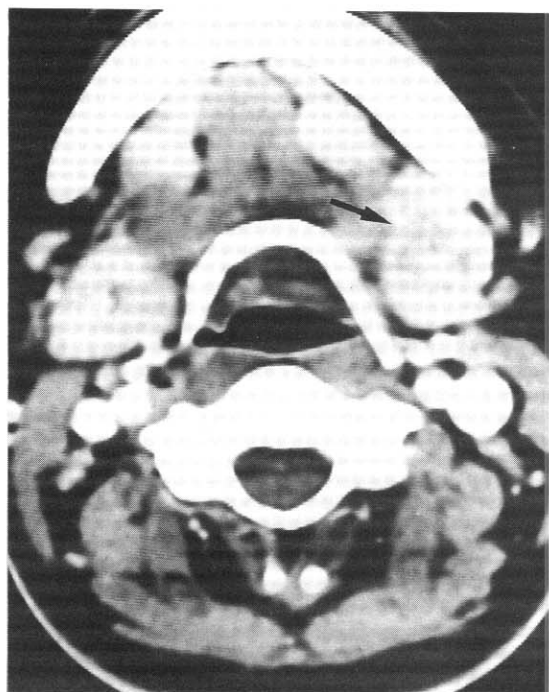


Fig. 2. Neck computerized tomography shows central hypodense area of 1.5cm after contrast material & gland itself is also slightly enlarged as comparing with minimal periglandular edema in fat plane.



Fig. 3. Chest computerized tomography shows a round & soft tissue nodule of 1.8x2.0cm at upper portion of anterobasal segment of RLL which shows smooth margin without calcification within. There are no demonstrable lymphadenopathy.

이었고 생검상 소수의 ductal structure가 보이는 주로 혈괴로 구성된 표본으로 mucous gland tumor를 배제할 수 없었다. 입원 6일째 상기 PCNA를 반복 시행하였으며 세포진 검사상 Pap Class III 이었고 생검상 adenoid cystic carcinoma로 진단되었다. 폐기능 검사와 WBBS 소견은 정상이었다. 입원 12일째 본원 이비인후과와 흉부외과에서 공동으로 수술을 시행하였다. 경부 종괴에 대해서는 좌측 악하선 절제생검과 좌측 설골상악척술(suprahoid neck dissection)을, 폐병변에 대해서는 우하엽 설상절제(wedge resection)를 하였다. 수술 소견상 경부 종괴는 악하선의 심부엽(deep lobe)에 위치하였으며 주변 연부 조직에 유착되어 있었고 정상 조직이 일부 남아 있었다. 림프절은 prevascular channel에 3개와 jugulodigastric 림프절 2개 있었다. 폐우하엽 종괴는 1x2cm 크기로 단단하였다. 수술 후 병리 소견상 악하선



Fig. 4. Adenoid cystic carcinoma of submandibular gland. The tumor has a typical cribriform pattern with perineural invasion.

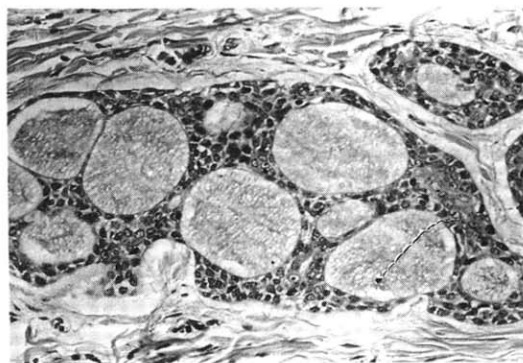


Fig. 5. Metastatic adenoid cystic carcinoma of lung. The tumor is similar to those of primary adenoid cystic carcinoma, including uniform tumor cells with scant cytoplasm surrounding transparent, mucoid spherical bodies.

의 선양낭성암종과 이의 폐전이로 진단되었다(Fig. 4,5). 수술적 병기는 T2N0M1으로 4기 이었다. 환자는 POD 14일째 퇴원하였다.

임상 경과

퇴원 후 외래를 통해 추적조사 중이며 현재 수술 후 13개월째로 재발이나 전이의 증거는 없다.

고 찰

침샘은 세쌍의 대침샘과 상기도와 소화관을 통해 산재하는 소침샘으로 구성된다. 조직학적으로 하나의 분비단위를 배열하면 한쪽에는 선방(acinus)이 있고 반대쪽에는 관부분(ductal element)이 있다. 이들 사이에 근상피세포(myoepithelial cell)가 존재한다. 이러한 다양한 세포형태로 인해 여러 종류의 악성병변이 발생한다. 침샘종양은 모든 두경부 종양의 약 5%를 차지한다. 이전의 방사선 조사는 대침샘의 pleomorphic adenoma와 mucoepidermoid tumor와 관련이 있고 가구와 목공 제작에 종사하는 사람들은 특히 부비강로(sinonasal tract)의 소침샘에 선암의 발생이 증가한다^{1,2)}.

실제 거의 모든 침샘종양은 상당수에서 악성화의 가능성으로 인해 수술적 절제가 요구된다. TMN 분류에 따른 JCC 병기를 치료도입 전 진단시 고려해야 한다¹³⁾. 일반적으로 침샘의 크기가 클수록 병변은 조직학적으로 양성일 가능성이 많다. 침샘종양의 대부분은 이하선에서 발생하고 이의 약 80%가 양성이다. 악하선과 소침샘의 종양은 훨씬 악성의 경향을 띤다. 선양낭성암종은 서서히 자라는 종양으로 원격전이는 약 40%로 가장 잘 일으며 또한 가장 긴 생존율을 나타내는 아형이다⁸⁾. 이하선암의 약 12%를, 악하선과 소침샘암의 약 50%를 차지한다¹³⁾.

진단은 문진과 이학적 검사, 그리고 방사선학적 영상에 기초한다. 어떤 악성종양, 특히 선양낭성암종에서 대신경초를 침범하는 경향이 있어 이상감각과 동통이 잘 발생한다⁴⁾. 미세침흡인(fine-needle aspiration)은 비록 세포진적 특징으로 악성의 정확한 조직진단을 세우는데 있어서는 오진할 수 있지만 침샘종양의 수술전 평가에 있어 안전한 방법이다^{1,5)}. 본 예에서는 일차 병변 부위에 두 차례의 미세침흡인을 시행하였지만 선양낭성암종의 조직학적 특징인 mucoid spherical body의 소견이 없었

을 뿐만아니라 악성의 소견 또한 없었다⁶⁾. 침샘종양의 최적요법은 수술적 절제이다. 본 예에서도 절제술을 시행하였으며 이미 진행된 병기에서 발견되었고 early-stage tumor에 좋은 성적을 보고하고 있는 local control을 위한 방사선 치료나⁷⁾ systemic chemotherapy는 이미 진행된 병기에서 더우기 폐전이를 가지고 있는 상황에서 치료 전략을 세우기가 어려웠다.

예후는 처음 진단시의 질병의 병기에 달려있고 뿐만 아니라 종양의 조직학적 분류와 분화단계(grade)도 영향을 미친다^{8,9,13)}. 선양낭성암종의 예후는 성장 양상(pattern of growth)에 따라 많이 영향을 받으며 이러한 양상은 분화 정도(grading system)로 사용되어져 왔고 이 경우 tubular pattern, cribriform pattern, 그리고 solid variety로 나타낸다. 일련의 보고에서 재발율은 상기 grade에서 각각 59%, 89%, 그리고 100%이었다¹⁰⁾. 또한 15년 누적 생존율은 각각 39%, 26%, 그리고 5%이었다¹¹⁾. 본 예는 전형적인 cribriform pattern이었으며 perineural invasion이 있었다. Smith 등⁶⁾이 보고한 대로 본 예에서도 전이성 폐병변에서의 병리 소견은 일차성 병변과 거의 동일하였다(Fig. 5).

일반적으로 선양낭성암종은 종양의 발생장소에 따라 예후가 달라진다. 부비강로와 후두기관의 복합체에서 기원시 빈번히 예후가 불량하다^{1,2)}. 폐전이는 만기의 진행된 병기에서 예후를 결정하는 것으로 보인다⁸⁾. Yoi-chiro 등⁸⁾은 재발성 병변에서 원격전이를 일으키는 데는 평균 10개월이 걸렸지만 일차성 병변에서는 평균 40개월이었으며 폐가 원격 전이의 가장 흔한 장소이었다고(78.5%) 보고하였다. 또한 Allen 등은 폐로 빈번히 전이하며 보통 무증상이며 전혀 증상이 없는 사람에게 있어서도 단순 흉부 X-선 상 다발성 결절을 발견하는 것이 드물지 않다고 보고하였다¹²⁾.

본 예에서 치료없이 일차성 병변으로부터 원격 전이를 일으키는 데 까지 시간 간격은 약 6~7년으로 추정할 수 있으며 수술 후 13개월에 접어든 현재, 재발이나 전이의 증거는 없는 상태이다.

REFERENCES

- 1) Kurt J. Isselbacher, Eugene Braunwald, Jean K.

- Wilson, Joseph B. Martin, Anthony S. Fauci, Dennis L. Kasper(eds): Harrison's principles of internal medicine. 3rd eds 1:1850, 1994
- 2) Gregory T. Wolf, Scott M. Lippman, George E. Laramore, Waun Ki Hong: Neoplasms of the head and neck. *Cancer medicine* 1:1240, 1993
 - 3) Conley J, Dingman DL: Adenoid cystic carcinoma in the head and neck(cylindroma). *Arch Otolaryngol* 100:81, 1994
 - 4) Juan Rosai: Ackerman's surgical pathology. 12 (1):663, 1989
 - 5) LacLeod CB, Frable WJ: Fine-needle aspiration biopsy of the salivary gland. *Diagn Cytopathol* 9: 216, 1993
 - 6) Smith RC, Amy RW: Adenoid cystic carcinoma metastatic to the lung. *Acta Cytol* 29:533, 1985
 - 7) Ellis ER, Million RR, Mendenhall WM: The use of radiation therapy in the management of minor salivary gland tumors. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* 15:613, 1988
 - 8) Yoichiro Hosokawa, Keiichi Ohmori, Masanori Kaneko, Michio Yamasaki, Mohiuddin Ahmed, Takuro Arimoto, Goro Irie. Analysis of adenoid cystic carcinoma treated by radiotherapy. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 74:251, 1992
 - 9) Conley J, Myers E, Cole R: Analysis of 115 patients with the tumors of submandibular gland. *Ann Otol Rhinol* 81:323, 1972
 - 10) Perzin KH, Gullane P, Clairmont AC: Adenoid cystic carcinomas arising in salivary gland. A correlation of histologic features & clinical course. *Cancer* 42:265, 1978
 - 11) Szanto PA, Luna MA, Tortoledo ME, White RA: Histologic grading of adenoid cystic carcinoma of the salivary glands. *Cancer* 54:1062, 1984
 - 12) Allen MS Jr, Marsh WL Jr: Lymph node involvement by direct extension in adenoid cystic carcinoma. Absence of classic embolic lymph node metastasis. *Cancer* 38:2017, 1976
 - 13) Levitt SH, McHugh RB, Gomez-Marin O, Hyams VJ, Soule EH, Strong EW, Sellers AH, Woods JE, Guillaumondegui OM: Clinical staging system for cancer of the salivary gland. *Cancer* 47:2712, 1981
-