

이하선에 발생한 상피근상피암

유태민 · 정영수 · 김문기 · 차인호 · 김진* · 김형준

연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실 및 구강병리학교실*

Abstract (J. Kor. Oral Maxillofac. Surg. 2003;29:131-134)EPITHELIAL-MYOEPITHELIAL CARCINOMA OF THE PAROTID GLAND
: A CASE REPORT

Tae-Min You, Young-Soo Jung, Moon-Key Kim, In-Ho Cha,

Jin Kim*, Hyung-Jun Kim.

Department of Oral & Maxillofacial Surgery and Oral Pathology, School of Dentistry, Yonsei University*

Epithelial-myoepithelial carcinoma(EMC) of the salivary glands is a rare tumor first described in 1972. The EMC comprises approximately 1% of all salivary gland tumors. It is characterized by tubular and solid growth pattern with a dual cell population including an inner layer of epithelial cells, which is peripherally bounded by a layer of clear myoepithelial cells. It is demonstrated that tumor with solid slowly growing pattern, generally have a higher frequency of local recurrence. We report a case of parotidic EMC in a 30 years old woman with literature review

Key words : Epithelial myoepithelial carcinoma, Epithelial cell, Myoepithelial cell

I. 서론

상피근상피암(Epithelial myoepithelial carcinoma)은 전체 타액선 종양의 1%미만을 차지하는 드문 종양¹⁻⁴⁾으로 주로 이하선에 호발하나 악하선 또는 소타액선에도 드물게 호발한다^{2,5)}. 1972년에 Donath 등이 처음 8예를 보고하였고¹⁵⁾, 1991년에 세계보건기구(WHO)에 의해 공식적으로 타액선 종양의 분류에 포함되어 졌다⁶⁾.

상피근상피암은 조직학적으로 두 가지 세포의 다양한 비율로 형성되는데 내측의 상피세포와 외측의 투명한 근상피세포의 2열구조로 구성되어 있는 것이 특징이다^{2,4)}. 주로 여성에게 호발하고, 호발 연령은 50-70대 이지만 8세의 어린 나이에서도 보고된 바 있다^{3,8)}. 이 종양은 조직학적으로는 저급 악성 종양 (low grade malignant tumor)이지만 높은 재발 및 전이율을 나타내므로 긴밀한 경과 관찰이 요구된다.

이에 저자들은 30세 여자 환자의 이하선에서 상피근상피암을 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

II. 증례보고

30세 여자 환자가 6개월간 지속된 좌측 전이 부위의 부종을 주소로 2001년 7월 28일 본과에 내원하였다. 초진시 이학적 검사상 좌측 전이 부위의 비정상적인 종창이 관찰되었으며, 촉진시 경결감은 있었으나, 압통은 없었다. 안면신경마비나 개구제한은 관찰되지 않았고, 좌측 이하선의 침샘 분비는 정상이었다. 비정상적인 경부 임파절은 촉진 되지 않았다.

환자의 과거력상 제왕절개 수술을 받은 기왕력의 특이할 만한 과거력이나 가족력은 없었다.

파노라마 방사선 사진에서는 비정상적인 소견이 없었고, 전산화 컴퓨터 단층 촬영 결과 좌측 이하선부위에서 교근 후방부까지 비교적 경계가 명확한 약간의 조영 증강이 있는 연조직 음영의 종물이 관찰되었다. 이 종물은 이하선 심부로 일부 연장되었으며, 교근 부위에서는 일부 경계가 불분명하였다(Fig. 1). 자기공명 영상 사진(Fat suppressed T1 weighted image)에서는 같은 부위에서 조영 증가된 병변이 관찰되었다 (Fig. 2).

2001년 8월 6일 이하선 종양 가진하에 전신마취하에 종물을 포함한 이하선 절제술을 시행하였다.

수술시에 시행한 동결 절편 조직검사(frozen biopsy)상 이하선 심엽(deep lobe), 안면신경 전방부에서 양성이 나와, 안면신경의 관골지(zygomatic branch), 협근지(buccal branch), 하악지(marginal mandibular branch)를 포함하여 광범위 절제술을 시행하였다. 절제된 종물은 20mm×20mm 크기로 여러 개의 고형성 종물로 이

김형준

120-752, 서울특별시 서대문구 신촌동 134번지
연세대학교 치과대학병원 구강악안면외과 교실

Hyung-Jun Kim

Dept. of OMFS, School of dentistry, Yonsei University
134 Shinchon-Dong Seodaemoon-Gu, Seoul, Korea
Tel. 82-2-361-8759

E-mail : kimoms@yumc.yonsei.ac.kr



Fig. 1. A CT scan showed a nonhomogeneously enhancing mass in the left superficial lobe of the parotid gland with some deep lobe extension, but without associated cervical lymphadenopathy.



Fig. 2. Fat suppressed T1 weighted axial MRI showed high signal intensity as compared with skeletal muscle.

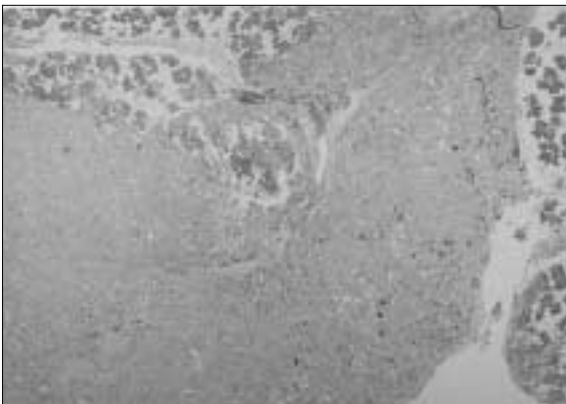


Fig. 3. Photomicrograph showing no encapsulation and partially infiltrative growth into surrounding normal glandular tissue (H-E stain, X40)

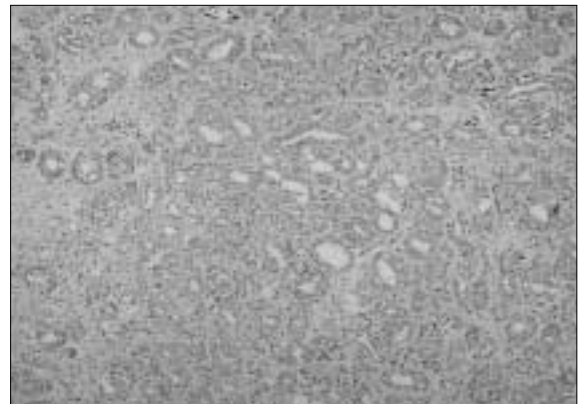


Fig. 4. Photomicrograph showing tumor cells forming double layered duct-like structures and solid nests (H-E stain, X100)

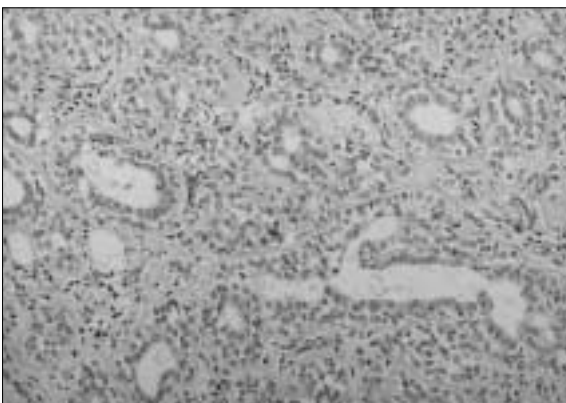


Fig. 5. Photomicrograph showing characteristic double-layered duct-like structures consisting of an inner layer of eosinophilic duct-lining cells and outer layer of clear myepithelial cells (H-E stain, X400)

루어져 있었고. 광학 현미경 소견상 피막이 없으며, 부분적으로 종양이 주위의 정상 타액선으로 침윤되는 양상을 보였다(Fig. 3). 종양은 2층의 관상구조(tubular structure, duct-like structure)로 이루어져 있었고(Fig. 4), 내측은 편평한 호산성의 상피세포(inner eosinophilic epithelial cell)로 구성되고, 외측은 좀 더 크고 투명한 근상피세포(outer clear myoepithelial cell)로 구성되어 있었으며, 내강내에는 간혹 호산구성 물질 (eosinophilic material)이 차있었다(Fig. 5). 2001년 9월 12일부터 2002년 10월 19일까지 4회에 걸쳐 총 104Gy의 방사선 치료를 시행받았고, 3개월 간격으로 경과 관찰하고 있으나, 재발 및 전이 소견은 관찰되지 않았다.

III. 고 찰

상피근상피암(Epithelial myoepithelial carcinoma)은 전체 타액선 종양의 1%미만을 차지하는 드문 저급 악성 타액선 종양으로¹⁴⁾, 관을 형성하는 상피세포와 그것을 둘러싸고 있는 외측의 투명한 근상피세포의 2열구조로 되어 있는 것이 특징이다. 1972년 Donath 등¹⁵⁾이 처음으로 8예를 보고하기 전에는 clear cell adenoma, glycogen-rich adenoma, adenomyoepithelioma, tubular solid adenoma, clear cell carcinoma 등의 다양한 이름으로 불리우기도 하였다⁷⁾. 주로 이하선에 호발하지만, 소타액선과 부비동, 인두, 기관지⁹⁾ 같은 구강의 장소에서도 보고 되어지고 있다. 중년 이상의 여성에서 발병하는 것으로 알려져 있으며(60%) 주로 60대에 호발하나 8세에서 103세까지의 범위를 가진다^{3,8)}. 상피근상피암과 비슷한 조직학적 구조가 유방부위와 피부에서도 보고되어지고 있다¹⁰⁾

임상적인 증상은 특징적이지는 않다. 천천히 성장하는 무통성의 종창으로 나타나며 크기는 2cm에서 12cm까지 다양하다. 드물게는 통증과 안면신경의 마비 증상을 동반하기도 한다¹¹⁾.

조직학적 소견을 살펴보면 침윤적으로 성장하며, 상피세포(epithelial cell)와 근상피세포(myoepithelial cells)의 2가지 세포로 구성되어 있는 관상구조(tubular) 또는 고형 양상(solid pattern)을 보인다. 상피세포는 근상피세포의 안쪽에 위치하고 호산성 세포질을 가지며, 입방 형태(cuboidal)로 타액선의 개재관 세포(intercalated duct cell)와 유사하다. 도관 내부에는 Periodic acid schiff stain(PAS)에 양성인 호산구성 물질(eosinophilic material)을 함유하기도 한다. 근상피세포는 상피세포의 바깥쪽에 위치하며 크기가 상피세포보다 크고, 다각형 모양이며, 투명하게 염색되고, 글리코겐(glycogen)이 풍부한 세포질을 갖는 것이 특징이다. 일반적으로 근상피세포가 더 많은 비율을 차지하며, 세포의 이형성(cytologic atypia)은 미약하고 세포분열 지수(mitotic index)는 낮으나 신경, 혈관으로의 침윤이 관찰 되어지기도 한다.

면역조직화학검사에서 상피세포는 케라틴(cytokeratin)에, 근상피세포는 S-100 protein과 근액틴(muscle actin)에 양성 반응을 나타낸다¹²⁾

1993년에 Fonseca와 Soares⁵⁾는 상피근상피암을 tubular-cribriform형과 solid형으로 분류하였으며, anti-proliferating cell nuclear antigen PC10 antibody를 이용한 면역 조직 화학검사로 투명한 근상피 세포의 증식이 활발한 것을 밝혀 이 세포가 많은 부분을 차지한 solid형이 더 악성이라고 하였다. 본 증례의 경우는 tubular-cribriform형과 solid형이 부분적으로 혼재된 양상이었다.

Toida와 Shimokawa¹⁷⁾에 의하면 근액틴(muscle actin)은 근상피세포의 표식자이며, 광범위한 투명세포(clear cell)의 증식을 보이는 암종으로부터 상피근상피암종을 감별할 수 있다고 하였다.

조직학적으로 감별해야 될 진단으로는 투명세포(clear cell)를 갖는 종양으로 투명세포암(clear cell carcinoma), 피지암(sebaceous carcinoma), 점막상피암(mucoepidermoid carcinoma), 소포세포암(acinic cell carcinoma)을 들 수 있는데, 이 종양들은 관상구

조(tubular structure)를 보이지 않는다. 전이암(metastatic carcinoma)에서는 신세포암(renal cell carcinoma)를 감별해야 한다¹²⁾.

치료 방법은 인접 입파선을 포함한 수술적 적출법이며, 종양이 없는 정상 조직을 포함하여 절제해야 하고, 안면신경의 침범이 있는 경우에는 안면신경도 같이 제거한다⁷⁾. 국소적 재발을 방지 위해 부가적인 방사선치료 및 항암요법을 실시하고 있으나, 이에 대한 평가는 더 필요한 상태이다¹³⁾.

상피 근상피암은 저급 악성 종양(low grade malignancy)로 1992년까지의 문헌고찰에서 42%의 재발율이 보고되었다³⁾. 재발 발견까지의 기간은 처음 수술후 9개월부터 28년까지이며, 신장, 폐, 뇌로의 전이도 보고되어 지고 있다¹⁵⁾. Cho 등⁴⁾은 상피 근상피 암종의 특징적인 양상으로 진단 후 재발 및 전이까지 기간이 길어 평균적으로 재발은 5년, 전이는 15년이라고 하였고, 33년간 26예에서 50%의 재발율과 25%의 전이율을 보고하였다.

예후는 조직학적 양상과는 무관하며 고형의 성장 양상(solid growth pattern), 핵이형성(neuclear atypia), DNA이수성(DNA aneuploidy)을 보이는 종양에서 더 나쁜 예후를 보인다고 보고 되어지고 있다¹¹⁾.

IV 요 약

상피근상피암은 타액선, 특히 이하선에 호발하는 매우 드문 악성 종양으로 내측의 상피세포와 외측의 투명한 근상피세포의 2열구조로 구성되어 있는 것이 특징이고, 비교적 국소 재발 및 전이를 잘하는 것으로 보고 되었다. 저자들은 드문 타액선 종양인 상피근 상피암을 이하선에서 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하였으며, 본 증례의 경우 향후 재발 및 전이 여부 파악 위해 주기적인 경과 관찰이 필요하리라 사료된다.

REFERENCES

- Seifert G, Sobin LH : Histological typing of salivary gland tumours. In: World Health Organization International Histological Classification of Tumors. 2nd edn. Berlin: Springer-Verlag 1991.
- Batsakis JG, El-Naggar AK, Luna MA : Epithelial-myoepithelial carcinoma of salivary glands. Ann Otol Rhinol Laryngo 101: 540-542, 1992.
- Simpson RHW, Clarke TJ, Sarsfield PTL et al : Epithelial-myoepithelial carcinoma of salivary glands. J Clin Pathol 44: 419-423, 1991.
- Cho KJ, El-Naggar AK, Ordonez NG et al : Epithelial-myoepithelial carcinoma of salivary glands. A clinicopathologic, DNA flow cytometric and immunohistochemical study of Ki-67 and HER-2/neu oncogene. Am J Clin Pathol 103: 432-437, 1995.
- Fonseca I, Soares J. : Epithelial-myoepithelial carcinoma of the salivary glands. A study of 22 cases. Virchow Archiv A pathol Anat 422: 389-396, 1993.
- Seifert G, Brocheriou C, Cardesa A et al : WHO international classification of tumors. Tentative histological classification of salivary gland tumors. Pathol Res. Pract. 186: 555-581, 1990.
- Marrow TA, Chun T, Mirani N : Epithelial-myoepithelial carcinoma of salivary glands. Ear Nose Throat 69: 646-648, 1990.
- Moringana S, Hashimoto S, Tezuka F : Epithelial-myoepithelial carcinoma of the parotid gland in a child. Acta Pathol Jpn 42: 358-363, 1992.

9. Nistal M, Garcia-Viera M, Martinez-Garcia C et al : Epithelial-myoeithelial tumor of the bronchus. Am J surg Pathol 18: 421-5, 1994.
10. Wick MR, Ockner DM, Mills SE et al : Homologous Carcinomas of the Breasts, Skin and Salivary Glands. Am J Clin Pathol 109: 75-84, 1998.
11. Corio RL, Sciubba JJ, Branon RB et al : Epithelial-myoeithelial carcinoma of intercalated duct origin. A clinicopathologic and ultrastructural assesment of sixteen cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 53: 280-7, 1982.
12. Tralongo V, Daniele E : Epithelial-myoeithelial carcinoma of salivary glands: A review of literature. Anticancer Res 18: 603-8, 1998.
13. H.Deere, M.B.B.S, I. Hore, F.R.C.S, N. Mcdermott et al : Epithelial-myoeithelial carcinoma of the parotid gland: a case report and review of the cytological and histological features. J of Larygology & Otology. 115: 434-436, 2001.
14. Hans-Udo Kasper, Walter Mellin et al : Epithelial-myoeithelial Carcinoma of the Salivary Gland-A Low Grade Malignant Neoplasm? Report of Two Cases and Review of the Literature. Pathol. Res. Pract. 195: 189-192, 1999.
15. Donath K, Seifert G, Schmitz R : Diagnosis and ultrastructure of the tubular carcinoma of salivary gland ducts. Epithelial-myoeithelial carcinoma of the intercalated ducts. Virchows Arch(Pathol Anat) 356: 16-31, 1972.
16. Noel S, Bronza JP: Epithelial -myoeithelial carcinoma of salivary gland with metastasis to lung : report of a case and review of the literature. Head and neck 14: 401-406, 1992.
17. Toida M, Shimokawa K : Epithelial myoeithelial carcinoma of the parotid gland: report of a case. J oral Maxillfac Surg 53: 476-80, 1995
18. 강기훈, 김장묵, 송태현 등 : 이하선 상피-근상피암종 1예, 대한식도외과학회지, 6(1) : 108-112, 2000.