

비강저에 발생한 점액상 장형 비부비강 선암종 1예: 증례보고 및 문헌고찰

조현규¹⁾, 노태호¹⁾, 한승용²⁾, 조은애산드라²⁾, 남웅^{1)*}

¹⁾연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

²⁾연세대학교 치과대학 구강병리학교실

〈Abstract〉

A Case of Mucinous Intestinal Type Sinonasal Adenocarcinoma of the Nasal Floor

Hyeon-Gyu Jo¹⁾, Taeho Roh¹⁾, Seung-Yong Han²⁾, Eunae Cho²⁾, Woong Nam^{1)*}

¹⁾Department of Oral & Maxillofacial Surgery, Yonsei University College of Dentistry, 50-1 Yonsei-ro, Seodaemun-gu, Seoul, Republic of Korea

²⁾Department of Oral Pathology, Yonsei University College of Dentistry, 50-1 Yonsei-ro, Seodaemun-gu, Seoul, Republic of Korea

According to the classification of World Health Organization, primary adenocarcinomas of the sinonasal tract can be initially classified as salivary and non-salivary types. The latter are further divided into intestinal and non-intestinal types.

Sinonasal intestinal-type adenocarcinoma(ITAC) is rare adenocarcinoma subtype, which is closely occupational exposure to hardwood dusts, leather.

In this study, we present a case of ITAC in a 68-year-old man. We successfully treated with wide excision and soft tissue reconstruction with free anterolateral thigh flap.

Key words: Sinonasal, Intestinal-type, Mucinous adenocarcinoma, Nasal floor

I. INTRODUCTION

비강 및 부비동에서 발생하는 악성 종양의 경우 모든 악성 종양의 1% 정도이며, 두경부에서는 3% 정도로 낮은 비중을 차지한다.¹⁾ 대부분의 두경부에서 발견되는 선암종은 대타액선이나 소타액선 기원으로 발생하며, 선암종의 경우 타액선형(salivary type)과 비타액선형(non-salivary type)으로 나눌 수 있다. 비부비동 원발성 악성 종양 중 비부비동 선암종의 경우 10~20% 정도를 차지하며 타액선형과 비타액선형으로 분류되며, 비타액선형은 장형(intestinal type) 또는 비장형(non-in-

testinal type)으로 분류한다.²⁾

주로 50~60대 남성에서 발생하며, 정확한 원인은 알려져 있지 않지만 wood나 leather dust와 같은 직업과 관련하여나 환경적인 carcinogen과 강한 연관성이 있다. 목재분진에 노출된 사람들은 adenocarcinoma의 가능성이 900배나 증가한다고 보고되어있다.^{3,4)}

비부비강 선암종은 일반적으로 저분화 선암종에 속하며, 공격적인 성장 경향 및 높은 재발 빈도를 보인다.⁵⁾

현재까지 국내에는 비부비강에서 발생한 선암종이 1차례 보고된 바 있으나 본 증례보고는 우측 비강저 부위에 발생하여 비부비강 선암종 증례1건을 구강 내 접근법을 통해 치료하였으며, 조직병리학적인 분류가 다르기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

* Correspondence: Woong Nam, Department of Oral & Maxillofacial Surgery, Yonsei University College of Dentistry, 50-1 Yonsei-ro, Seodaemun-gu, Seoul, Republic of Korea

Tel: +82-2-2228-8750

Email: omsnam@yuhs.ac

ORCID: 0000-0003-0146-3624

Received: Jan. 16, 2023; Revised: Jan. 20, 2023; Accepted: Feb. 10, 2023

II. CASE REPORT

68세 남성 환자는 우측 안면부 자발통 및 양치질 시 우측 입천장 부위의 통증을 주소로 본원 구강악안면외과로 내원하였다. 의과적 병력으로 뇌경색 병력이 있었다. 기타 병력이나 가족력은 특이사항 없으며, 과거력상이나 직업상에도 화학물질이나 목재분진 등에 노출된 과거력은 없었다. 신체진찰 시 육안으로는 특별한 이상 소견은 확인되지 않으나 촉진 시 우측 연구개 부위의 비교적 단단하고 고무 같은 느낌의 종괴 확인되며, 통증도 함께 호소하였다(Fig. 1A). 종괴의 위치와 범위를 파악하기 위해서는 전산화단층촬영을 시행하였다. 전산

화단층촬영에서 우측 비강저 부위에 불균일한 조영증강 및 인접 치조골을 개조시키는 종괴 확인되었다(Fig. 1B).

해당 부위 전신마취 하 구강 내 접근을 통한 조직생검검사를 시행하였다. 주변조직으로부터 분리되지 않는 경결감 있는 종괴 관찰되었다(Fig. 1C).

이를 토대로 추가적인 영상 검사를 시행하였다. 자기공명영상에서는 T2 조영증강 영상에서 구개부 후방 부위로 불균일하게 조영증강을 보이는 불규칙한 경계의 약 2.9 x 2.1 x 1.7cm 크기의 종괴가 관찰되었다. 전산화단층촬영과 유사하게 우측 비강저와 경구개를 침습하는 골 파괴 양상을 보였다(Fig. 2A).

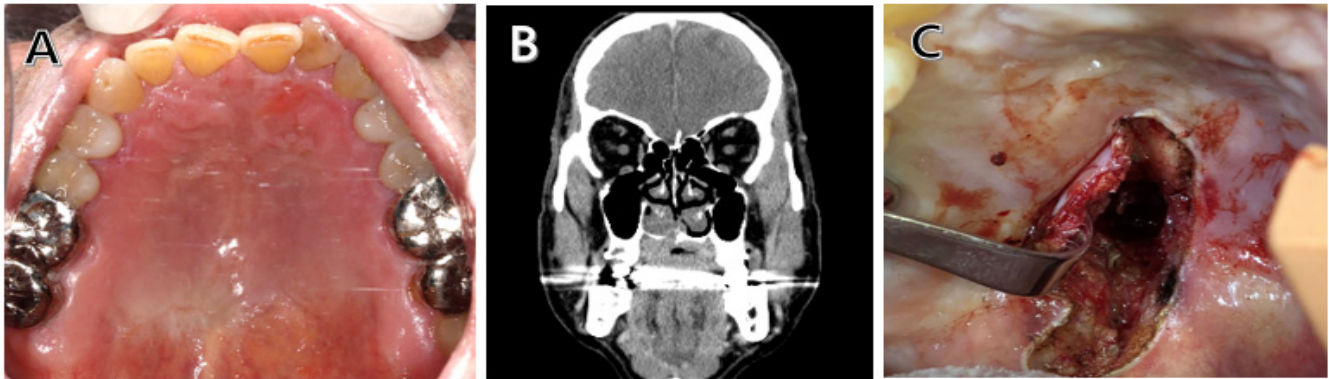


Fig. 1. A. Preoperative clinical photo, no specific intraoral defect.
 B. Contrast-enhanced computed tomography scans show heterogeneously enhancing soft tissue mass on right nasal floor, and hard palatal bone destruction
 C. Incisional biopsy under general anesthesia. The tumor is rigid mass not divided from the surrounding tissue

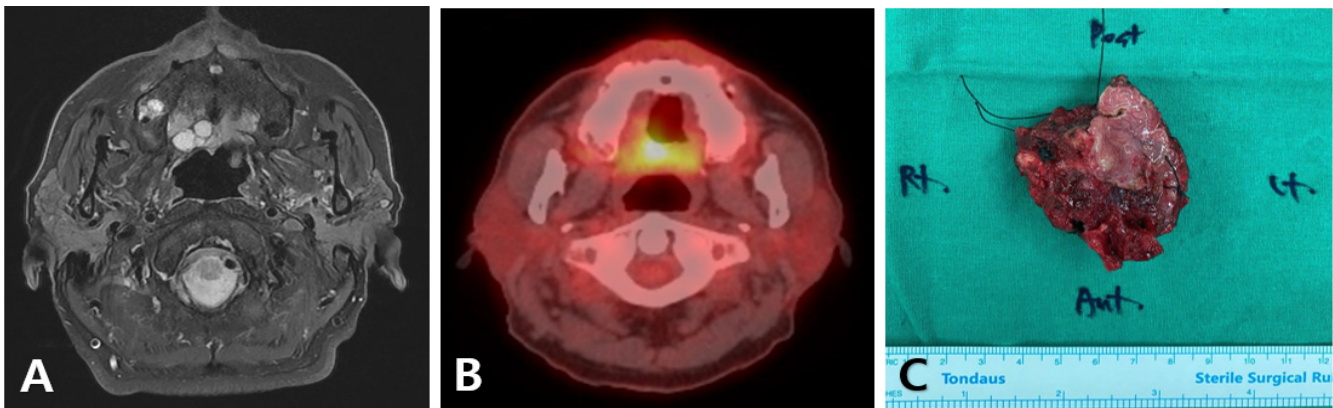


Fig. 2. A. Magnetic resonance imaging. Soft tissue enhancing on the right soft palate, nasal floor.
 B. Whole body positron emission tomography, Increased FDG uptake on soft palate.
 C. Open biopsy gross photograph, Sinonasal intestinal-type adenocarcinoma (superior view)

PET-CT에서 경부 림프절이나 다른 장기로의 전이 소견은 보이지 않았다(Fig. 2B). 술 전 영상학적 검사에서 골 내 침윤 소견이 있어 구강 내 접근을 통한 부분적 상악골 절제술을 통한 종양 제거를 결정하였다. 여러 부위에서 시행한 동결절편 검사에서 잔존하는 종양 세포는 보이지 않았으며, 구강 내 결손부위에 대해서는 전외측대퇴유리피관을 이용한 재건을 시행하였다(Fig. 2C).

조직 검사 결과, 병소는 얇은 섬유성 격벽을 지닌 다낭성 구조였으며, 다량의 세포 외 점액질 성분으로 이루어져 있었

다. 또한 점액 기질 내에 단층의 종양 상피가 부유하는 소견이 관찰되었다(Fig. 3A). 병소는 대체로 경계가 좋은 형태였으나, 국소적으로 골이 파괴되는 소견도 관찰되었다. 종양 상피 세포는 기저막에 위치한 핵과 점액성 세포질을 지닌 원주성 세포 형태로, 장형 세포와 유사한 형태였다(Fig. 3B). 세포 이형성은 미미하였고, 반지세포(signet ring cell)는 관찰되지 않았다.

이러한 조직 검사 결과를 바탕으로 해당 병소는 점액상 장형 선암종(intestinal type adenocarcinoma, mucinous type)으로 진단하였다.

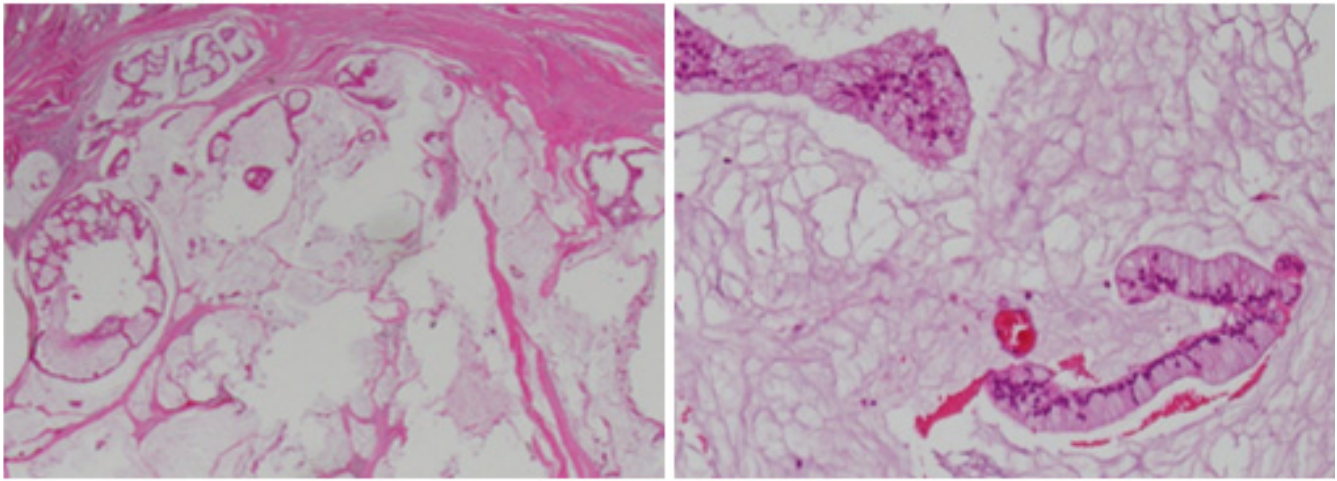


Fig. 3. Histopathologic examination with hematoxylin and eosin (H&E) staining.
 A. Multicystic structure composed of detached, floating epithelium in mucous pool (×12,5)
 B. Columnar epithelial cells with nuclei aligned in basal area and abundant mucous cytoplasm (x100)

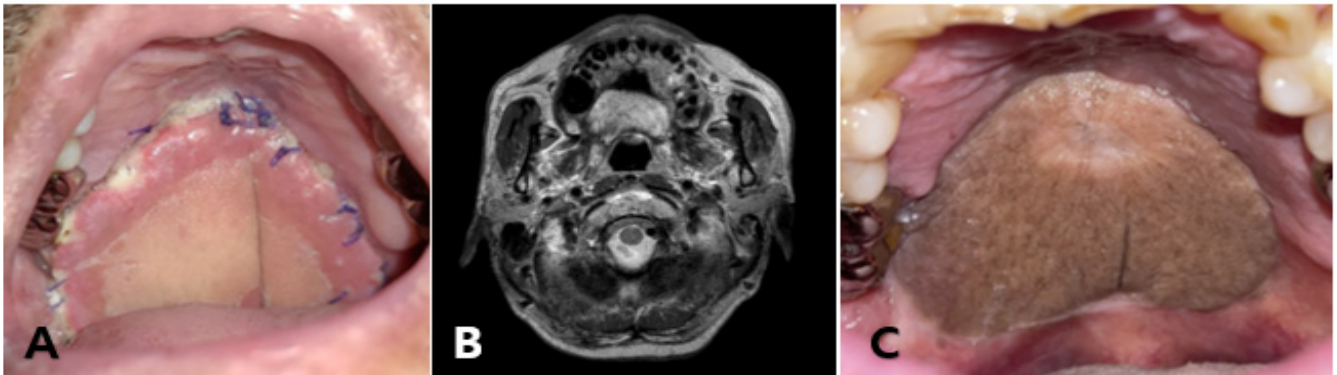


Fig. 4. A. Postoperative follow-up clinical photo after 1 months.
 B. Postoperative magnetic resonance at 6 months after the procedure demonstrate no evidence of recurrence, Axial T2-weighted.
 C. Postoperative follow-up clinical photo after 6 months.

환자는 병소에 대해 광범위 절제술 및 연조직 결손부 재건술 시행 후 연구개 부위 6000 cGy의 방사선치료와 함께 cisplatin을 이용한 항암치료를 진행하였다. 수술 후 6개월째 촬영한 자기공명영상 및 임상적인 구내 소견 상 재발 소견 없이 현재 외래 정기 관찰 중이다(Fig. 4. A, B, C).

III. DISCUSSION

비부비강 선암종의 경우 비부비강 부위의 발생 가능한 악성종양 중 선양낭성암종 다음으로 흔하게 확인되며, 비부비강 암종의 13% 정도를 차지한다.¹⁾ 주로 사골동(40%), 비강(25%), 상악동(20%) 순으로 발생하는 것으로 알려져있으며, 병소가 진행될 경우 안와, 익돌구개, 측두하와, 두개강 부위까지도 병소의 진행이 발생할 수 있다.⁶⁾ 비강에서 발생할 경우 중비갑개와 하비갑개 부위가 가장 흔한 원발 부위이며, 호흡시 외부 물질이 먼저 유입되는 입구로 기능을 하는 것과 관련이 있을 것으로 예상된다.⁷⁾ 암종의 다른 장기로의 원격 전이는 약 20% 정도이며, 경부 림프절 전이는 약 10% 정도의 환자에서 발생하며, 국소 재발이 주된 사망의 원인이 된다.⁸⁾

비부비강 장형 선암종의 경우에는 Barnes의 분류법이나 Kleinsasser와 Schroeder의 분류방법을 주로 사용하고 있다. 먼저, Barnes 분류법은 비부비강 장형 선암종을 5가지 분류로 나누었다. 조직학적인 기준에 따라 유두상(papillary), 고형상(solid), 장상(colonic), 점액상(mucinous)와 혼합형(mixed)으로 구분한다.⁹⁾ Kleinsasser and Schroeder 분류법의 경우에는 유두상관 원통 세포형(papillary-tubular cylindrical cell type), 폐포 배형(alveolar goblet cell type), 도장반지형(signet-ring cell type), 과도기형(transitional cell type)으로 구분하였다.¹⁰⁾ 본 증례는 Barnes 분류를 따르면 국내에서는 보고되지 않은 점액상 비부비강 선암종에 해당되는 조직병리학적 특징을 보인다.

보통 임상적인 증상은 편측성이나 양측성으로 비폐색, 비출혈, 비루 등의 증상이 확인된다. 이는 일반적인 만성 염증성 비부비강 질환과 증상이 유사하여 진단이 늦어질 수 있다.¹¹⁾

선암종의 경우 일반적으로 치료 원칙은 종양의 완전한 수술

적 절제 및 술 후 방사선 치료이다.¹²⁾ 수술적 접근방법에 대해서는 확립된 것은 없으나 두개안면부 접근법, 구강 내 접근법, 내시경을 이용한 접근법 등 다양한 방법이 있다. 그러나 수술적인 접근법은 병소의 위치, 크기, 주변 해부학적 구조의 침습 정도 등에 따라 달라질 수 있다. 최근 비부비강에서 발생한 선암종이나 다른 악성 종양에 대해서 비교적 덜 침습적이고, 합병증이 적은 비내접근법으로 내시경 수술을 통한 증례들이 많이 보고 되고 있으나, 본 증례의 경우에는 해부학적 구조 및 침범 측면에서는 구강 내로 수술적인 접근을 하였다.^{13,14)}

본 환자는 본과에 비전형적인 안면부 통증을 주소로 내원했으며, 구강 내 특이할만한 의심소견이 없어 다소 다른 보고된 비부비강 장형 선암종과는 임상적 특징이 달랐다. 치통이 함께 동반되기 때문에 쉽게 치아 문제로 생각하기 쉬울 수 있어 다른 질병과 감별이 필요하다.

특히 비부비강 장형 선암종의 경우 국소적으로 공격적인 성장을 보이며, 전이는 비교적 드문편이다. 조직학적인 진단이 중요하며, 이는 다른 타액선 종양과 오진할 수 있기 때문이다. 그리고 추가적인 염색법을 통해서 등급이나 기원을 분류해야하며, 다른 영상 촬영 방법을 통해 위나 소장 등의 위장관으로부터의 전이성 선암종과 감별해야 한다.¹⁵⁾

본 68세 남환의 경우에도 연령, 성별에서는 위험군에 속하지만 직업 및 환경적인 발암물질에 노출된 과거력은 없었다. 수술 전 검사를 끝낸 후에 다른 장기로의 원격 전이는 확인되지 않고, 원발성 병소로 판단하여 수술적으로 광범위 절제 및 수술 후 방사선 및 항암치료를 시행하였다.

REFERENCES

1. Bhayani MK, Yilmaz T, Sweeney A, Calzada G, Roberts DB, Levine NB: Sinonasal adenocarcinoma: a 16-year experience at a single institution. *Head Neck* 2014;36:1490-1496.
2. Leivo I: Sinonasal Adenocarcinoma: Update on Classification, Immunophenotype and Molecular Features. *Head Neck Pathol* 2016;10:68-74.
3. Acheson ED, Cowdell RH, Hadfield E, Macbeth RG: Nasal cancer in woodworkers in the furniture industry. *BMJ*

- 1968;2:587-596.
4. Nylander LA, Demart JM: Carcinogenic effects of wood dust: review and discussion. *Am J Ind Med* 1993;24:619-647.
 5. Franchi A, Gallo O, Santucci M: Clinical relevance of the histological classification of sinonasal intestinal-type adenocarcinomas. *Hum Pathol* 1999;30: 1140-1145.
 6. Leivo I: Update on sinonasal adenocarcinoma: classification and advances in immunophenotype and molecular genetic make-up. *Head Neck Pathol* 2007;1: 38-43.
 7. Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D: World Health Organisation classification of tumours. Pathology and genetics of head and neck tumours. Lyon: IARC Press; 2005. pp. 20-22.
 8. Lund VJ, Chisholm EJ, Takes RP, Suárez C, Mendenhall WM, Rinaldo A: Evidence for treatment strategies in sinonasal adenocarcinoma. *Head Neck* 2012;34:1168-1178.
 9. Barnes L: Intestinal-type adenocarcinoma of the nasal cavity and paranasal sinuses. *Am J Surg Pathol* 1986;10:192-202.
 10. Kleinsasser O, Schroeder H-G: Adenocarcinoma of the inner nose after exposure to wood dust. Morphological findings and relationships between histopathology and clinical behavior in 79 cases. *Arch Otolaryngol* 1988;245:1-15.
 11. Hoeben A, van de Winkel L, Hoebens F, Kross K, Driessen C, Slootweg P, Tjan-Heijnen VCG, van Herpen C: Intestinal-type sinonasal adenocarcinomas: The road to molecular diagnosis and personalized treatment. *Head Neck* 2016;38:1564-1570.
 12. Lund VJ, Chisholm EJ, Takes RP, Suarez C, Mendenhall WM, Rinaldo A: Evidence for treatment strategies in sinonasal adenocarcinoma. *Head Neck* 2012;34:1168-1178.
 13. Meccariello G, Deganello A, Choussy O, Gallo O, Vitali D, De Raucourt D: Endoscopic nasal versus open approach for the management of sinonasal adenocarcinoma: A pooled-analysis of 1826 patients. *Head Neck* 2016;38 Suppl 1:E2267-74.
 14. Jardeleza C, Seiberling K, Floreani S, Wormald PJ: Surgical outcomes of endoscopic management of adenocarcinoma of the sinonasal cavity. *Rhinology* 2009;47:354-361.
 15. McKinney CD, Mills SE, Franquemont DW. Sinonasal intestinal-type adenocarcinoma: immunohisto-chemical profile and comparison with colonic adenocarcinoma. *Mod Pathol* 1995;8:421-426.

