

양측 이하선에 발생한 Warthin씨 종양 1례

고신대학 의학부 이비인후과학교실

김창덕·이강대·이종담

= Abstract =

A Case of Warthin's Tumor of Bilateral Parotid Gland

Chang Dug Kim, M. D., Kang Dae Lee, M. D., Jong Dam Lee, M. D.

Department of Otolaryngology, Kosin Medical College

Warthin's tumor of parotid gland which also known as papillary cystadenoma lymphomatosum or adenolymphoma is extremely rare in black and orientals.

This rare benign tumor occurs predominantly in middle-aged white males with 10 per cent incidence of bilaterality and is characterized by its specific histopathological appearance and ability to concentrate the radioisotope Technetium-99m. Recently, we have experienced a case of Warthin's tumor of bilateral parotid gland in a 48 year-old-male patient, and report with review of literature.

서 론

Warthin씨 종양은 adenolymphoma,¹⁶⁾ papillary cystadenoma lymphomatosum³⁰⁾ 등으로 불리우며 동양인에선 아주 드물게 발생하는 이하선의 양성종양이다.

이 종양은 중년백인 남자에 호발하며 약 10%에서 양측성으로 나타나고 특징적인 병리조직학적 소견을 가지며 동위원소 Technetium-99m을 이용한 타액선주사술(salivary gland scanning)에서 열종(hot nodule)을 나타내는 점이 이하선의 다른 종양과 상이하다.

저자들은 최근 양측이하선에 발생한 Warthin씨 종양 1례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 김○○, 남자, 48세

초 진 : 1989년 4월 25일

주 소 : 양측 이하부 종창

현병력 : 약 6년전 우연히 이하선부위에 무통성의 종물이 촉지되었고 2개월후 좌측에도 발생하였다. 종물은 서서히 크기가 증가하였으며 특별한 치료는 하지 않았다.

과거력 및 가족력 : 특이사항 없었다.

이학적 소견 : 전신상태는 양호한 편이었으며 체격은 중등도에 다소 비만하였고 국소소견상 양측 이하부에 3×4cm 정도의 가동성의 연한 종물이 촉지되었으나 동통 및 압통 그리고 안면 신경마비는 없었으며 경부임파절도 촉지되지 않았다(그림 1, 2).

임상검사 소견 : 혈액검사상 백혈구증가증(13,700mm²), 뇨검사상 단백뇨(+)이외에 간기능검사, 심전도 등은 모두 정상이었다.

X-선 검사소견 : 흉부 X-선 검사는 정상이

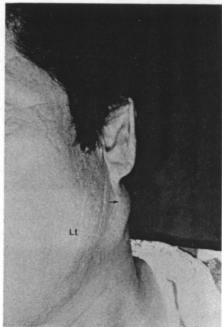
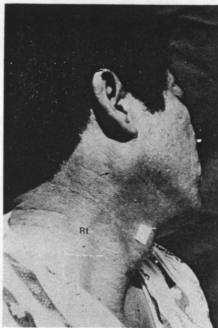


Fig. 1, 2. Preoperative figure shows movable soft masses on the tail of bilateral parotid gland.

있고 타액관조영술(sialography)상 양측이하선이 약간 커져있었고 이하선도관이 약간 밀려있었으나 도관이 불규칙적이거나 폐색되지는 않았다. 초음파조영상상 양측 이하선 부위에 3×2cm 크기의 경계가 분명할 혼합성의 고 에코성과 저 에코성 종괴음영(mixed echogenic and echopoor mass density)의 소견을 보였다. 컴퓨터 단층촬영소견상 양측 이하선 미부에 낭종성 종물의 음영이 있고 주위 임파절 비대 및 주변조직에 대한 유착은 없었다(그림 3).

타액선주사소견(salivary gland scanning) : 양측 이하선 미부에 특징적인 열종(hot nodule)이 보였다(그림 4).

수술소견 : 1989년 6월 9일, 11월 14일 2회에 걸쳐 양측 이하선천엽절제술을 시행하였다(그림 5).

우측 : 전신마취하에 통상의 Y-형 절개로서 이하선을 노출시키고 안면 신경자극기를 사용하여 협부 및 하악분지를 찾고 역행성방법으로 안면 신경주간을 동정한 후 이하선미부에 위치한 종물을 완전히 적출하였다.

좌측 : 순행성방법으로 이주연골단(tragal pointer)을 지표로 삼아 안면 신경주간을 동정한 후 안면 신경분지를 확인하면서 이하선천엽을 전하방으로 박리한 후 종물을 완전히 적출하였다.

병리조직학적소견

적출된 종물은 우측은 3.5×2.5×3cm와 좌측은 5×3.5×2.2cm의 크기로 외면은 불규칙하며 회갈색을 띠고 있었다. 절단면은 피막으로 잘 싸여진 회백색의 종물과 황색의 연조직이 섞여있는 것을 볼 수 있었다(그림 6, 7). 현미경소견은 호산성 종양세포로 구성된 낭성종양을 볼 수 있었고 상피세포는 두층으로 선상형으로 배열되어 있었으며 때때로 배중심(germinal center)을 가지는 많은 임파선지질(lymphoid stroma)에 의해 둘러싸여 있었다(그림 8).

경과

우측 이하선천엽절제술후 안면신경마비가 있어 스테로이드, 혈관확장제, 물리치료등 보존적 요법으로 술후 1개월째 완전히 회복되었고 좌측 수술후는 안면신경마비등과 같은 특이한 합병증 없이 퇴원하였다.



Fig. 3. C-T scanning shows cystic masses (◄) on the tail of bilateral parotid gland.

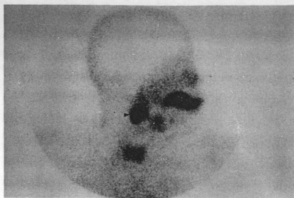


Fig. 4. Salivary gland scanning shows hot nodule(►) on parotid gland area.

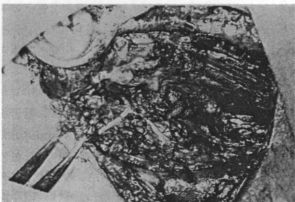


Fig. 5. Left superficial parotidectomy completed and facial nerve preserved. Main trunk(→), temporofacial(◄) and cervicofacial(◁) branches of facial nerve is well identified.

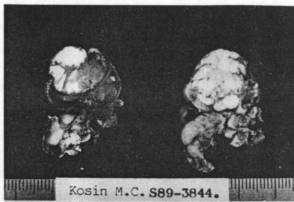


Fig. 6. Removed right parotid gland mass. The external surface is irregular and gray brown. On section, cut surface shows well-capsulated, gray white and firm mass admixed with yellow mass.

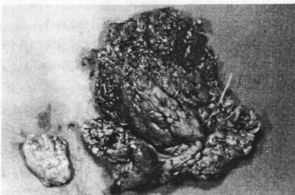


Fig. 7. Removed left parotid gland mass shows irregular and gray brown color. Also submitted enlarged lymph node is seen.

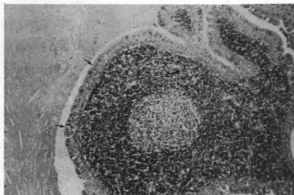


Fig. 8. Microscopic view($\times 100$). The epithelial cells(→) are arranged in cystically glandular pattern, lined two cell layers. Lymphoid tissue is prominent often with germinal center(◁).

Warthin씨 종양은 adenolymphoma,¹⁶⁾ papillary cystadenoma lymphomatosum,²⁰⁾ cystic papillary adenoma⁴⁾ 등으로 불리어지는 주로 이하선에 발생하는 양성종양으로 1895년 Hilderand¹⁸⁾에 의해 선천성 낭종의 한 종류로 처음 보고되었다. 1929년 Warthin²⁰⁾은 미국에서 처음으로 이 종양을 보고하였는데 papillary cystadenoma lymphomatosum으로 명명하였다. WHO와 유럽에선 adenolymphoma란 명칭을 사용하고 있으나 악성의 의미를 내포하는 단점이 있어 미국에선 간결하고 편리하며 특이한 Warthin씨 종양이라는 명칭이 널리 쓰이고 있다.^{10,23)} Warthin씨 종양의 발생빈도는 전 이하선종양의 2~6% 혹은 5~10%라는 보고가 있으며 양성종양으로는 혼합종 다음으로 많은 것으로 되어 있는데 국내의 보고에는 아주 드문 것으로 나타나고 있다. 김등¹⁾은 이하선 종양의 1.7%에서 발생한다고 했고, 이등²⁾과 김등²⁾은 단 1례도 볼 수 없었다고 보고하였다.

연령별로는 어느 연령에서도 생길 수 있으나 50~70세에서 가장 많으며 남자에서 5배정도 많고^{10,19)} 동양인과 흑인에게 아주 드문 것으로 보고되고 있다.^{8,10,13)} 즉 중년 백인 남자에 호발한다. 이 종양은 서서히 자라는 무통성의 연한 종양으로 이하부나 이수전면에서 주로 축적되며^{9,10,19)} 10%에서 양측성으로 발생하고¹⁶⁾ 다발성인 경우도 있다. 그러나 McGurk등²²⁾은 18%에서 염증으로 동통이 있었다고 보고하였다. 이 종양에 관련하여 선암, 편평상피암, 점막표피양종양 및 임파종등이 발생되기도 하는데^{6,7,12)} 매우 드물기 때문에 이 종양을 악성으로 생각하는 경우는 거의 없다. 또한 주위 임파절결핵이나^{11,25)} 유육종증등²⁶⁾과 같이 나타나는 경우도 있으며 낭내용물의 유출로 인해 이물성 육아종으로 보이기도 한다.²⁷⁾

Warthin씨 종양의 발생기전에 대해서는 여러 학설이 있으나 다음 두가지 학설이 유력시되고 있다. 첫째로 가장 널리 알려진 학설로서 태생 4~6주경 구강상피에서 기원한 원시이하선이 후방으로 성장하면서 안면신경, 임파절결

은 간엽조직을 둘러싸는데 이 결과로 이하선 내부와 주위의 임파절에 정상적으로 존재하는 타액선도판에서 발생한다는 것^{26,28)}으로 Warthin씨 종양이 거의 모든 경우 이하선에서만 발생하며 그리고 Warthin씨 종양내에 임파절구성요소들이 존재한다는 것을 설명해 준다.⁵⁾ 두번째는 도판상피의 증식과 여기에 염증 혹은 면역반응으로 임파세포가 걸집하여 발생한다는 것^{16,18)}으로 이는 Warthin씨 종양이 악화선²⁰⁾이나 부타액선등에서도 발생할 수 있으며 Warthin씨 종양내에 대식구, 형질세포, 면역아세포같은 염증성분이 존재하는 것을 설명해 준다. 한편 Allegra⁵⁾는 전자현미경적 연구에서 Warthin씨 종양은 종양이 아니고 delayed type의 hypersensitivity에 의한 자가면역질환의 가능성을 제시하였다.

육안적으로 이 종양은 완전히 피막에 싸여 있으며, 직경 2~6cm의 크기를 가지며 평균 3cm이다.⁵⁾ 절단면상 대개 단실의 낭(unilocular cyst)처럼 보이나 다실의 낭 혹은 아주 드물게 다결정성의 모습으로 보일 수도 있으며 장액성이나 점액성 혹은 갈색의 액체가 나올 수도 있다. 조직학적으로는 낭내로 많은 유두상돌기가 두층의 호산성상피세포로 둘러싸여 있으며 주위에 배종심(germinal center)을 지니는 임파성 기질(lymphoid stroma)을 볼 수 있다.¹⁰⁾

Warthin씨 종양은 전 이하선종양중 특징적으로 oncocytoma와 함께 동위원소 Technetium-99m을 농축시키는 능력이 있어 scanning 상 열종(hot nodule)이 나타나므로 진단적 가치가 매우 높다.⁹⁾ 초음파조영술은 이 종양에서 보조적인 방법으로 시행되는데 이는 이 종양이 낭종성 공간과 견고한 종물로 이루어져 있으나 검사상 저음향성 낭종성 병변의 양상을 나타내기 때문이다.⁹⁾ 세침천자생검 세포학검사로도 진단이 가능하나 타 타액선종양과는 달리 확진율이 다소 낮으며 가장 확실한 진단은 수술시 동결절편을 얻어 병리조직검사를 실시하는 것으로 정상 이하선조직의 불필요한 제거를 피할 수 있다.^{9,10)}

치료는 외과적 제거가 원칙이며 대개 이하선천엽제거술로 충분하며 수술시 안면신경자

극기를 사용하여 안면신경 손상의 위험도를 줄일 수 있다. 수술후 재발율은 5.5~12%^{15,24)} 정도라는 보고가 있으며 이는 종양의 제거가 불충분하였거나 다른 병소에 새로이 생길 경우에 나타날 수 있다.¹⁰⁾

결 론

저자들은 최근 48세 남자에서 양측 이하선에 발생한 Warthin씨 종양 1례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

1. 김성수, 김진영 : 타액선 종양에 대한 임상적고찰. *한이인지* 19 : 477-486, 1976
2. 김정규, 이종원, 조재식 : 이하선 종양에 대한 임상적고찰. *한이인지* 30 : 256-262, 1987
3. 이광길, 최진국, 김지환 외 : 한국인의 타액선 종양에 관한 병리조직학적 및 임상적 연구. *대한병리학회지* 8 : 49-58, 1974
4. Albrecht H and Arzt L : Beitrage zur Frage der Gewebsverirrung. Papillare Cystadenome in Lymphdrusen. *Frankfurt Ztschr f path* 4 : 47, 1910
5. Allegra SR : Warthin's tumor : A hypersensitivity disease ? Ultrastructural light and immunofluorescent study. *Hum Pathol* 2 : 403-420, 1971
6. Assor D : Bilateral Carcinoma of the parotid, One Cancer Arising in a Warthin's tumor. *Am J Clin Pathol* 61(2) : 270-274, 1974
7. Baker M, Yuzon D and Baker BH : Squamous Cell Carcinoma Arising in Benign Adenolymphoma(Warthin's tumor) of the Parotid Gland. *J Surg Oncol* 15(1) : 7-10, 1980

8. Batsakis JG : Tumor of Head & Neck. Clinical and Pathological Considerations, Baltimore : William & Willkins 991-38, 1975
9. Chapnik TS : The controversy of Warthin's tumor. *Laryngoscope* 77 : 1840-1848, 1983
10. Chaudhry AP and Gorlin RJ : Papillary cystadenoma lymphomatosum(adenolymphoma) : a review of the literature, *Am J Surg* 95 : 723-731, 1958
11. Colling DH and Shucksmith HS : Tuberculosis of parotid adenolymphoma and of lymph glands incorporating salivary ducts, *J Path & Bact* 66 : 399, 1953
12. De La Pava S, Knutson GH, Mukatar F, et al : Squamous Cell Carcinoma arising in Warthin's tumor of parotid gland. *Cancer* 18 : 790-794, 1965
13. Evans RW, Guickshank AM : Epithelial Tumors of the Salivary glands, Philadelphia : Saunders 37-57, 1970
14. Fantasis JE and Miller AS : Papillary Cystadenoma lymphomatosum Arising in Minor Salivary Glands. *Oral Surg* 52(4) : 411-416, 1981
15. Foote FW and Frazell EL : Tumor of the major salivary glands. *Cancer* 6 : 1065-1133, 1953
16. Hall EM : Adenolymphoma (orbital inclusion adenoma) of the parotid glands. *Arch Path* 19 : 756-757, 1935
17. Hart MN and Andrew JL : Papillary Cystadenoma Lymphomatosum Arising in Oral Cavity. *Oral Surg* 26 : 588-591, 1968
18. Hildebrand O : Uber angeborene apitheliale Cysten und Fisteln des Halses. *Arch F Klin Chir* 49 : 167, 1985
19. Ibi A, Yokobayashi T, Kawasaki T et al : Bilateral Warthin's Tumor : report of case and review of Japanese literature. *J*

- Oral Surg 39 : 362-366, 1981
20. Kukreja HK and Jain HK : Adenolymphoma of Submandibular Salivary gland. J Laryngol Otol 85(11) : 1201-1203, 1971
 21. Martin H and Ehelich HE : Papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin's tumor) of the parotid salivary gland. Surg Gynec & Obst 79 : 611-623, 1944
 22. McGurk FM, Martin JHP and Orr JA : Adenolymphoma of the parotid gland. The British J of Surg 57 : 321-325, 1970
 23. McQuarrie DG and Winter L : Papillary Cystadenoma Lymphomatosum. An Unusual incidence. Arch Surg 93(3) : 511-516, 1966
 24. Orloff MJ : Benign epithelio-lymphoid lesions of the parotid gland, papillary cystadenoma lymphomatosum and Mikulicz disease. Surg Gynec & Obst 103 : 521-541, 1956
 25. Owen TK : Tuberculosis in an adenolymphoma of parotid gland J Path & Bact 58 : 295, 1946
 26. Rauch, S, Seifert, G and Gorlin, RJ : Disease of the salivary glands. St. Louis, C V Mosby Co 1970
 27. Shaw, HJ and Friedmann, I : Bilateral adenolymphoma of parotid salivary gland associated with tuberculosis. Brit J Surg 46 : 500-505, 1959
 28. Thomson AS and Bryant HC Jr : Histogenesis of papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin's Tumor) of the parotid salivary gland. AM J Path 26 : 807-849, 1950
 29. Vandelberg HJ, Kambouris A, Prizybilski T, et al : Salivary tumors : clinicopathologic review of 190 patients. Am J Surg 108 : 480-484, 1964
 30. Warthin AS : Papillary cystadenoma lymphomatosum. A rare teratoid of the parotid region J Cancer Res 13 : 116, 1929