

## 이하선에서 발생한 상피-근상피암종 1예

동아대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

이은지 · 박현수 · 홍종철

### A Case of Epithelial-Myoepithelial Carcinoma in Parotid Gland

Eun Ji Lee, MD, Heon Soo Park, MD, PhD and Jong Chul Hong, MD, PhD

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Dong-A University College of Medicine, Busan, Korea

#### — ABSTRACT —

Epithelial-myoepithelial carcinoma is a very rare tumor. It is a low-grade malignant tumor and grows slowly, has a clear boundary of a lesion on a CT. As for its treatment, resection including free margin is the first priority, and it shows a recurrence rate of 40%, but its five-year survival rate is 87.5%. The authors lately carried out a micro-invasive examination of a mass in the right parotid gland of a 62-year-old female, but it neither showed any malignancy nor was distinguished from pleomorphic adenoma on CT. For the diagnosis and treatment, superficial parotidectomy was performed. In a histopathological examination, she was diagnosed with an epithelial-myoepithelial carcinoma so till now she does not show any recurrence. Therefore, the authors would like to report that epithelial-myoepithelial carcinoma of the parotid gland, which has rarely been reported in literature, was diagnosed and treated successfully. (J Clinical Otolaryngol 2015;26:288-291)

**KEY WORDS** : Parotid gland · Epithelial-Myoepithelial carcinoma.

#### 서 론

상피-근상피 종양은 이하선에 생기는 매우 드문 종양으로 악하선이나 소타액선에서 발견 되기도 한다.<sup>1)</sup> 국내에서는 이하선, 악하선 및 비강내에서 발생한 보고가 있다.<sup>2,10)</sup> 상피-근상피 암종은 주변 조직으로 국소적인 침범을 하는 저등급 악성 종양이나 재발률은 35~40%로 높다.<sup>3)</sup>

상피-근상피 암종을 진단하기 위한 방법으로는 세침흡인생검, 중심부 바늘 생검이 가장 먼저 시행되며, 영상

학적으로 3 cm 이상으로 크기가 크고 경계가 불분명하며 이질에요영상 등의 소견을 보이거나 영상학적 소견만으로는 기타 종양과의 감별은 어렵다고 알려져있다.<sup>4)</sup> 병리학적으로는 주로 침샘의 사이관의 상피세포와 근육상피세포의 증식성 변화소견을 보이거나 그 소견이 다양해 다른 종양과의 감별 진단이 쉽지 않다.<sup>5)</sup> 치료원칙은 잔류암이 남아 있지 않도록 자유연을 확보하여 종양을 절제하는 것이다.<sup>2)</sup> 저자들은 영상학적 및 세침흡인생검에서 다형성 이하선종으로 의심되어 이하선 천엽 절제술을 시행한 환자에서 상피-근상피 암종으로 진단된 증례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

논문접수일 : 2015년 5월 1일

논문수정일 : 2015년 6월 19일

심사완료일 : 2015년 7월 17일

교신저자 : 홍종철, 49201 부산광역시 서구 대신공원로 26

동아대학교병원 이비인후-두경부외과학교실

전화 : (051) 240-5423 · 전송 : (051) 253-0712

E-mail : santa@dau.ac.kr

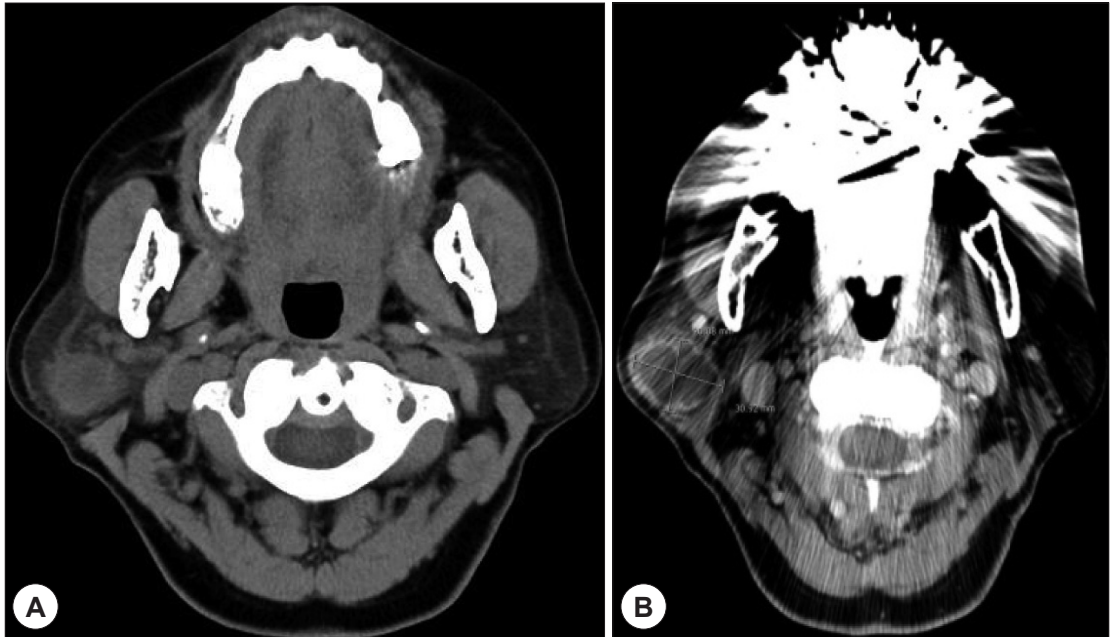
#### 증 례

62세 여자 환자가 내원 20일 전부터 발생한 우측 귀밑 종물이 축지되어 다른병원에서 약물 치료 하였으나 호

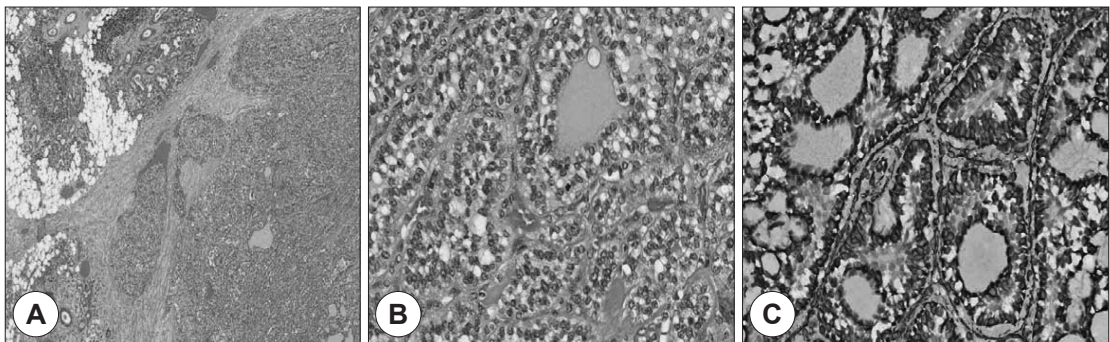
전을 보이지 않아 본원으로 전원 되었다. 환자는 내원 당시 우측 귀밑 종물 및 국소적 통증, 열감을 호소하였지만 발열, 오한, 상기도 감염 증상 등의 다른 특이 증상은 보이지 않았다. 가족력에서 특이 사항은 없었다. 경부 전산화 단층 촬영에서 우측 이하선에 3.1×2.0 cm 크기의 타원형 모양의 종괴가 관찰되었으며, 조영증강영상에서 가장자리 조영증강을 보이고 중심부는 저음영을 보였다

(Fig. 1A, B).

종양을 진단하기 위하여 세침 흡인 검사를 시행하였고 악성 종양의 소견은 보이지 않았다. 임상적, 영상학적 검사에서 우측 이하선 종양이 의심되어 전신마취하에 종양절제술을 시행하였다. 수술은 종양을 포함한 이하선 전엽 절제술을 시행하였고, 술 중 시행한 동편절편검사에서는 양성종양 소견을 보였다. 적출된 종괴는 육안적



**Fig. 1.** Axial neck CT scan. A : An ovoid mass is seen in the right parotid gland. B : Post-enhance, About 3.1×2.0 cm sized, ovoid mass lesion is found in the right parotid gland. That shows peripheral rim enhancement and central low attenuation.



**Fig. 2.** A : The lower power view of the tumor (right side) invading the surrounding gland showing chronic inflammation (Hematoxylin-Eosin stain, ×20). B : The high power view of the tumor composed of two cell layered (epithelial and myoepithelial cell layers) acini showing occasional mitotic figure (arrow) (Hematoxylin-Eosin stain, ×200). C : The luminal cells show no staining to mesenchymal marker, anti-vimentin, while the bottom cells show positive staining, suggesting myoepithelial differentiation (Immunohistochemistry for vimentin, ×200).

으로 피막에 잘 둘러싸여 있었으며 낭포성 변화를 보이는 회갈색의 연부조직으로 이루어져 있었고 크기는 2×1.5 cm이었다. 병리학적 검사에서 저배율시야에서 이하선은 만성염증이 동반되어 있었고 종양세포가 주변의 이하선으로 침범하는 양상을 보이고 있었다(Fig. 2A). 고배율시야에서는 분열하는 세포들이 관찰되었으며 상피세포, 근상피세포의 두 층으로 이루어진 종양을 관찰할 수 있었다(Fig. 2B). Anti-vimentin을 이용한 면역 염색 검사에서 바닥세포가 양성반응을 보이는 반면 내강세포는 염색되지 않아 근상피 암종으로 확진 되었다(Fig. 2C). 종괴의 절제면에서 종양세포는 관찰 되지 않았다. 수술 후 시행한 양전자 방출 단층 촬영에서 전이 소견은 없어서 추가적인 방사선 치료계획은 세우지 않았으며 환자는 수술 후 합병증 없이 퇴원하였다. 현재 외래에서 주기적인 경과 관찰 하고 있으나 술 후 25개월이 지난 현재까지 재발 소견은 보이지 않고 있다.

## 고 찰

상피-근상피 암종은 1972년 Donath등에 의해 처음 소개되었고 공식적으로 세계보건기구(World Health Organization, WHO)분류에서 상피-근상피 암종으로 분류 된 것은 1991년이였다.<sup>6)</sup>

상피-근상피 암종은 타액선 종양의 0.4~1.0%를 차지하는 굉장히 드문 종양이며<sup>7)</sup> 그 중 80%정도는 이하선에 발생하지만 드물게는 소타액선, 악하선에서도 발생하기도 한다.<sup>8)</sup>

임상적으로는 서서히 자라나는 무통성 종물을 특징으로 하여 환자들은 본 증례의 환자처럼 귀밑의 종창으로 내원하는 경우가 대부분이다.

상피-근상피 암종을 진단 하기 위한 영상학적에서 가장 먼저 이용되는 것은 초음파 검사이다. 간편하고 빠르고 반복검사가 가능하고 비침습적인 이유로 가장 먼저 이용되긴 하지만 병변이 깊어 있거나 염종소견과 종양과의 감별이 필요할 경우에는 적절하지 못하다. 다음으로 사용할 수 있는 방법이 전산화 단층 촬영과 자기 공명 영상이다.

Silvers와 Tas에 의하면 상피-근상피 암종은 전산화 단층 촬영에서 약하게 조영증강되며 부드러운 경계를

가진 명확한 비균질 병변을 보이며 자기공명영상에서는 다른 일반적인 이하선 악성 종양과 같이 불규칙하고 비균질한 병변으로 보인다고 하였다. 본 증례의 경우 전산화 단층 촬영에서 이하선 내의 종양의 크기는 3 cm 이상이었으며 조영 증강 영상에서 타원형의 종괴의 가장자리에 조영증강을 보이는 피막을 보였고 림프절 전이 소견은 보이지 않았고 균질적이고 명확한 경계를 보여 다형성종괴의 감별이 필요하였다.<sup>9)</sup>

상피-근상피암종은 침범의 사이관의 상피세포와 근육상피세포의 증식성 변화를 보이는 종양이며 그 소견이 다양한 근상피세포가 증식하면서 상피세포 종양의 간질세포 종양 양쪽으로 분화되는 형태를 모두 볼 수 있다. 이러한 조직 소견의 다양성 때문에 상피-근육상피암종은 다른 종양과의 감별진단이 쉽지 않다. 그 중 의미 있는 소견으로는 두 종류의 세포가 도말된다는 점, 투명 세포가 관찰된다는 점, 호산성의 구상물질로 저자들에 의해 가장 많이 언급 되었으며 진단적 가치가 있다고 생각된다.<sup>5)</sup> 본 증례의 세침흡입검사의 도말소견에서는 PAP & Giemsa 염색을 이용하였고 림프계 세포들 사이에 정상적인 타액선 선방세포가 관찰 되어 반응성 림프절 비대가 의심되었으며 악성 소견은 관찰되지 않았다.

면역 조직 화학 염색은 상피-근상피 암종의 두가지 종류의 세포를 알아 내기에 유용한 방법이다. 바깥 근상피 세포의 경우 P63에 민감하고 민무늬 근육에 특징적인 Smooth muscle actin(SMA)도 좋은 지표가 된다. 그외에도 S100, calponin, CK14이 사용되어져 왔으나 SMA, P63 만큼 유용하지는 않다. 안쪽의 관강 상피세포의 경우 SMA에는 음성이지만 AE1/AE3, CAM5.2와 같은 cytokeratin 표지자에는 양성을 보인다.<sup>3)</sup>

본 증례에서는 CK7에 양성을 보이는 관강세포와 P63, HMV-CK, S-100, SMA, Vimentin에 양성을 보이는 근상피세포로 이루어진 두 세포층을 확인함으로써 조직검사 결과 상피-근상피암종을 확진 하였다. 감별진단으로는 다형성 선종, 선양 낭성 암종, 포도상선 세포암, 전이성 신세포암 등이 있다.<sup>2)</sup>

상피-근상피 암종의 치료는 35~40%의 높은 재발률 때문에 종양의 완벽한 절제가 필요하다. 본 증례의 경우 종양의 크기가 2 cm였으며, 림프절 전이 및 원격전이가 없었기 때문에 AJCC에 따른 TMN stage에서 T1N0M0

이며 이는 stage1에 해당한다.

NCCN Head and Neck cancers guideline에 따르면 타액선 종양의 stage1일 경우 자유연을 포함한 종양의 절제가 이루어져야 하며 추가적인 화학항암요법이나 방사선 치료는 필요하지 않다. 따라서 본 증례에서도 종양에서 자유연을 확보하여 절제하였으며 병리소견에서 경계부위에 종양세포는 관찰 되지 않았고 이 후 추가적인 방사선치료와 항암치료는 시행하지 않았다.

상피-근상피 암종은 국소 침범하는 저급 악성 종양이지만 재발률은 35~40%정도로 높은편이며<sup>3)</sup> 8.5%에서는 신경주위침습, 신장, 뇌, 폐등으로 원격전이 하기도 한다.<sup>2)</sup> 본 증례의 환자의 경우 추가적인 방사선치료와 항암치료는 시행하지 않았고 이후 MRI 및 PET-CT를 이용한 경과관찰 하고 있으며 25개월이 지난 현재까지 재발이나 전이의 소견은 관찰되지 않았다.

중심 단어 : 이하선 · 상피-근상피 암종.

#### REFERENCES

- 1) Simpson RH, Clarke TJ, Sarsfield PT, Gluckman PG, Babajews AV. *Epithelial-myoepithelial carcinoma of salivary glands. J Clin Pathol* 1991;44(4):419-23.
- 2) Lee HJ, Hong JC, Rha SH, Park HS. *A case of Epithelial-myoepithelial carcinoma in left submandibular gland. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2010;53(9):582-4.
- 3) Hussaini HM, Angel CM, Speight PM, Firth NA, Rich AM. *A double-clear variant of epithelial-myoepithelial carcinoma of the parotid gland. Head Neck Pathol* 2012;6(4):471-5.
- 4) Pisciole I, Morelli L, Falzone A, Del Nonno F, Neri M, Di Rocco ZC, et al. *Epithelial-myoepithelial carcinoma of the parotid gland, unusual malignancy radiologically simulating a benign lesion: case report. Int Semin Surg Oncol* 2007; 4:25.
- 5) Pae WS, Roh SG, Lee NH, Yang KM, Kang MJ. *Fine-needle aspiration cytology of epithelial-myoepithelial carcinoma of the parotid gland: a report of two cases. Korean J Cytopathol* 2008;19(2):173-7.
- 6) Arora SK, Sharma N, Bhardwaj M. *Epithelial myoepithelial carcinoma of head and neck region. Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 2013;65(1):163-6.
- 7) Baker AR, MS, Ohanessian SE, Adil E, Crist HS, Goldenberg D, Mani H. *Dedifferentiated epithelial-myoepithelial carcinoma: Analysis of a rare entity based on a case report and literature review. Int J Surg Pathol* 2013;21(5):514-9.
- 8) Jin SM, Ryu HH, Ryu SH, Shin DY, Hwang HS, Kim CH, et al. *Epithelial-myoepithelial carcinoma on the superficial lobe of the parotid gland: case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* 2011;37(6):505-9.
- 9) Irene P, Luca M, Andrea F, Franca N, Marinella N, Zorika R, et al. *Epithelial-myoepithelial carcinoma of the parotid gland, unusual malignancy radiologically simulating a benign lesion: case report. Int Sem Surg Oncol* 2007;25(4):1-4.
- 10) Lee JG, Cho HP, Lee JK, Park JH. *A case of epithelial-myoepithelial carcinoma in sublingual gland. J Clinical Otolaryngol* 2014;25(1):75-9.