

비중격에서 발생한 재발성 기저세포선암종 1예

고신대학교 의과대학 이비인후과학교실,¹ 병리학교실²

차준상¹ · 오선주² · 권재환¹ · 김주연¹

A Case of Recurrent Basal Cell Adenocarcinoma Arising from Nasal Septum

Jun Sang Cha, MD¹, Sun-Ju Oh, MD², Jae Hwan Kwon, MD, PhD¹ and Jooyeon Kim, MD, PhD¹

¹Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery; ²Pathology, Kosin University College of Medicine, Busan, Korea

— ABSTRACT —

Basal cell adenocarcinoma of the nasal cavity is a rare lesion of the head and neck, besides it is often misdiagnosed as adenoid cystic carcinoma and other tumor disease. We encountered a 65-year-old patient with a recurrent basal cell adenocarcinoma arising from the nasal septum and hard palate. This patient was treated with preoperative concurrent chemo-radiation therapy (CCRT), the tumor was radically removed through midfacial degloving approach and postoperative additional radiation therapy. We present this rare case with a review of related literatures. (J Clinical Otolaryngol 2019;30:261-265)

KEY WORDS : Basal cell adenocarcinoma · Midfacial degloving.

서 론

비강과 부비동의 타액형암종은 매우 드문 암종으로 비부비동암종의 5~10%를 차지하며 비강과 부비동의 표면 상피와 장, 점액선에서 발생하는 것으로 알려져 있다.¹⁾ 주침샘과 부침샘에서 발생할 수 있는 타액형 종양 대부분이 비부비동에서 생길 수 있으며, 그 중 가장 흔한 타액형 종양은 다형선종(pleomorphic adenoma)이고, 악성으로는 선낭암종(adenoid cystic carcinoma)이 가장 흔하다.¹⁾ 비부비동에 생기는 기저세포선암종(Basal

cell adenocarcinoma)은 매우 드물어 영문 문헌 검색 상 여섯 건만이 보고된 바 있다.²⁾

이 암종은 기저세포선종의 악성 형으로 알려지기 시작하였는데, 주로 50~70대에 걸쳐 많이 발생하며, 남녀 간의 발생빈도는 차이가 없는 것으로 알려져 있다. 조직학적으로는 양성 기저세포 선종과 유사하지만, 신경과 혈관 침범이 빈번하여 악성으로 분류된다.^{3,4)}

본 증례의 경우는 경비강 내시경 수술만으로 접근이 어려운 비강의 재발성 기저세포선암종에 대해 술 전 항암방사선치료와 함께 안면중양부노출술(Midfacial degloving approach)을 통한 종양 제거 후 방사선치료를 시행하였으며 좋은 경과를 보이고 있기에, 이 암종에 대한 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

논문접수일 : 2019년 8월 6일

논문수정일 : 2019년 9월 10일

심사완료일 : 2019년 12월 5일

교신저자 : 김주연, 49267 부산광역시 서구 감천로 262

고신대학교 의과대학 이비인후과학교실

전화 : (051) 990-6470 · 전송 : (051) 245-8539

E-mail : oooo95@hanmail.net

Author note : Jun Sang Cha and Seon-Ju Oh are equally contributed.

증 례

65세 남자가 수개월간 재발하는 코피와 코 막힘을 주

소로 내원하였다. 내원 10년 전 비강 내 악성종양으로 비중격 절제술을 받은 병력이 있었다. 당시 술 전, 후 수술적 치료 외에 추가적인 치료는 받지 않았으며, 수 개월 경과 관찰 하다 추적 관찰이 소실되었던 환자로, 본원 내원 당시 내시경 상 비강 양측으로 비중격 기원으로 추정되는 출혈성의 종물이 관찰되었다(Fig. 1A). 이 종물은 경구개까지도 침범되어, 구개 점막은 보존되어 있었으나, 경구개의 경미한 불규칙적인 점막 상태와 함께 부분적 골 결손이 촉진되었다(Fig. 1B). 경부 이학적 검사상 비인강과 인후두에는 특이 소견이 없었고, 경부 촉진에서도 종물은 만져지지 않았다.

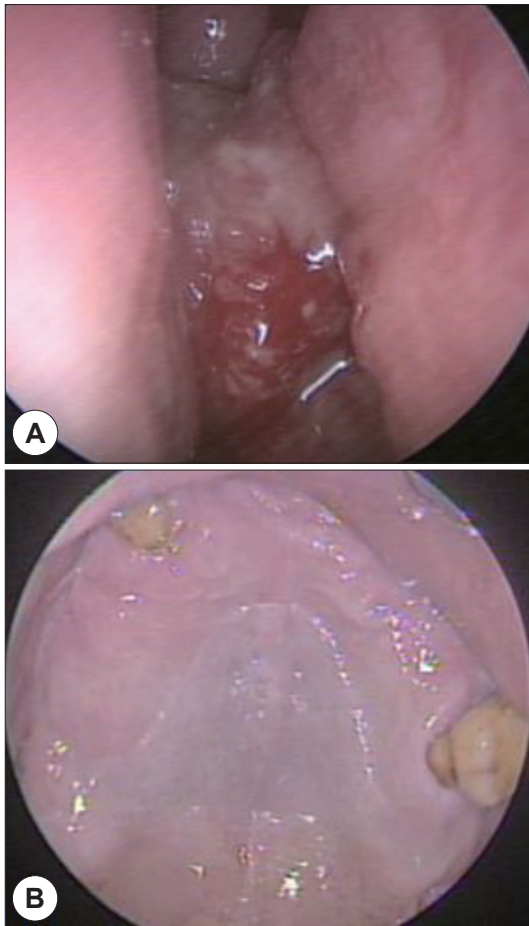


Fig. 1. Preoperative endoscopic view of nasal cavity (A) and oral cavity (B). A : Mass with irregular margin is found in left nasal cavity. It is easily bleeding tumor. B : Hard palate mucosa membrane is preserved but palpated focal bony erosion.

종양의 범위를 확인하기 위하여 시행한 두부 전산화 단층촬영에서 비중격, 하비갑개, 상악의 구개 돌기를 포함한 골 파괴 소견과 병변이 경구개까지 침범된 것이 확인되었다(Fig. 2). 흉부와 경부 전산화단층촬영과 양전자 컴퓨터 전산화단층촬영에서 저명한 전이 소견은 관찰되지 않았다. 외래에서 시행한 종양의 조직검사 결과는 기저세포선암종으로 보고되었다.

종양의 광범위한 수술적 절제로 인한 음식섭취와 발성의 문제를 줄이기 위해, 수술 전 항암방사선병합요법으로, Cisplatin 매주 70 mg 정맥주사를 2주간 시행하고, 20회의 총 4,000 cGy방사선 치료를 시행 하였으나 이후 병변의 큰 변화는 보이지 않았다.

수술은 병변이 비중격을 포함하여 넓게 분포하고 있었고, 경구개까지 침범을 한 상태였으므로 안면중양부 노출 접근을 통한 절제 수술을 계획하였다. 잇몸 볼 전 개선을 넣은 뒤 비강 내에서 가측절개선을 360도로 시행하여서 얼굴 피부 일부를 위로 들어올려 병변을 노출 하였다. 구강의 윗부분과 양측 상악동이 충분히 노출되었고 내시경을 함께 활용하여 과거 비중격절제술이 시행된 부분에서 더 경계를 넓혀 절제하였고, 코 기저부에 있는 약 3.0×2.0×1.0 cm의 덩이를 제거하였다. 이어 구강으로 접근하여 경구개 및 점막을 중심부 반지름 약 2 cm 정도를 드릴 이용하여 경구개 골부를 함께 제거하였다(Fig. 3). 각 절제 경계마다 동결절편검사를 통해 최대한 종양의 잔존 유무를 확인하였다. 술 후 경구개의 골 결손으로 인한 음식섭취와 발성의 장애를 최소화하기 위해, 치과와 협진하여 일차 밀폐장치(obturator)를 맞춤 제작하였으며 환자는 특별한 합병증 없이 수술 13 일 째 퇴원하였다. 술 후 최종 조직검사 결과는 기저세포선암종으로, 절제변연은 모두 음성으로 확인되었다.

이후 10년 전에 실시했던 비강 종물의 비중격 절제 검체와 이번 수술 이후의 조직 슬라이드에 대한 현미경 슬라이드 리뷰 결과 10년 전 검체에서는 저배율(HE×4)에서 종양세포는 세포 밀도가 높은 종괴로 고형성장 및 기둥(trabecular) 형태가 주를 이루고 있었고, 세포학적으로는 세포질이 적고 진한 난원형 핵을 가지는 세포로 구성되어 있으며 구조물 가장자리에서 울타리모양배열(palisading)을 하는 특징적인 소견과 함께 주위 조직으로의 침윤이 관찰되어 기저세포선암

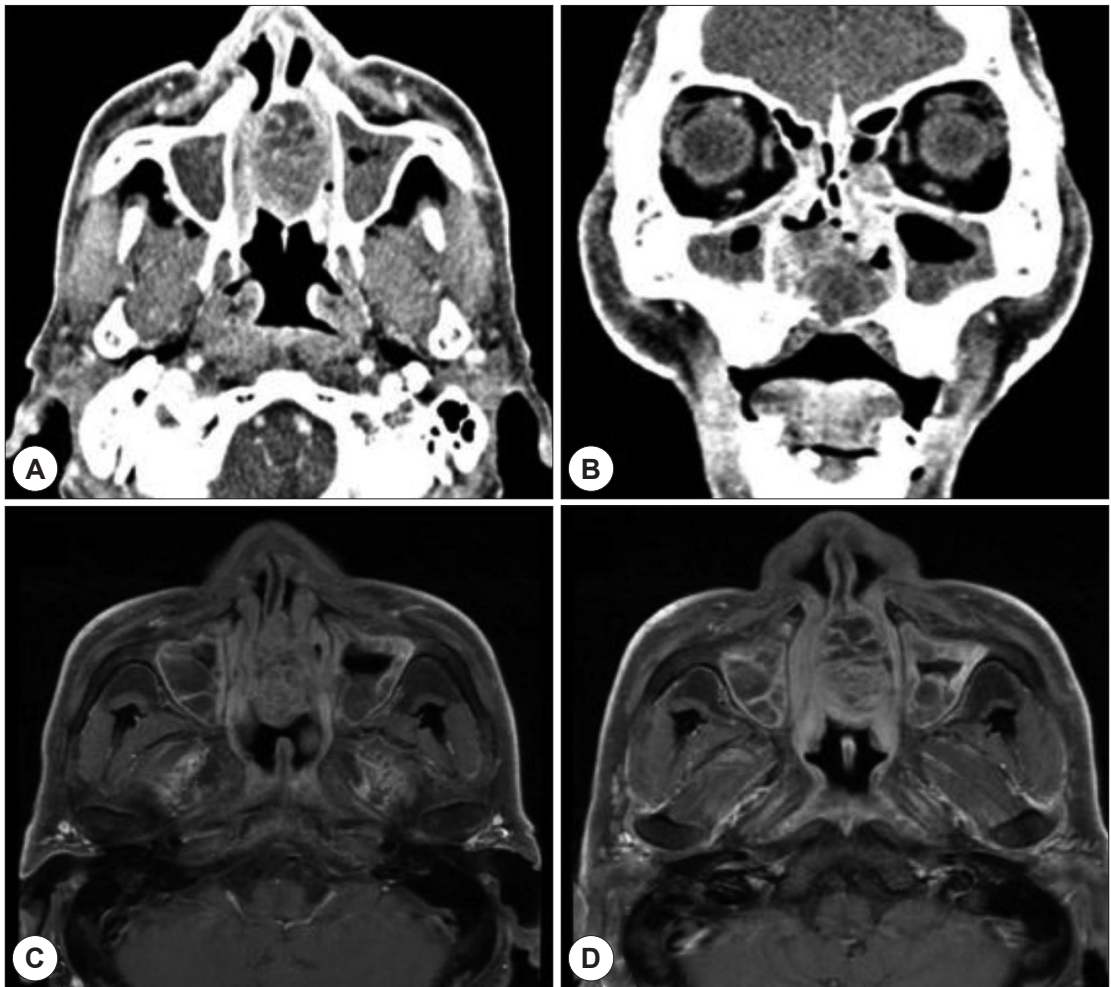


Fig. 2. Preoperative CT and MRI scan. Axial (A) and coronal (B) CT scans, and T1 weighted magnetic resonance images (C, D) revealed a heterogeneous, lobulated about 4.0×2.9 cm sized mass originating from the nasal septum and involving the hard palate, inferior turbinates and palatine process of maxilla bilaterally. CT : computed tomography, MRI : magnetic resonance images.

중임을 확인할 수 있었다(Fig. 4).

환자는 술 후 방사선 치료를 7회, 총 1,400 cGy를 추가하였으며, 수술부위의 변형에 따라 단계적인 구개 밀폐장치를 추가로 맞춤제작 하였다. 현재 수술17개월 후까지 종양의 원격전이나 국소 재발 없이 경과관찰 중이다(Fig. 5).

고 찰

기저세포선암종은 육안적으로는 피막없이 주위 조직

으로의 침윤을 보이는 종괴로 단단한 황백색 단면을 보이며 낭변화도 흔히 동반한다. 조직학적 소견 상 바닥 모양 상피세포로 이루어진 악성종양으로 종양의 세포 밀도가 높고, 종양세포는 대부분 고형 성장을 하고 세관, 기둥, 막을 형성하기도 하며 그 틈에는 소량의 사이질이 있다. 또한 세포질이 적고 진한 난원형 핵을 가지는 세포가 구조물 가장자리에서 울타리모양배열을 하는 모습이 특징적이다.⁹⁾ 현미경적 소견에서 주요 감별진단으로는 기저세포선종과 선낭암종이 있으며 이 중 기저세포선종과는 세포나 구조의 특징은 유사하여 구

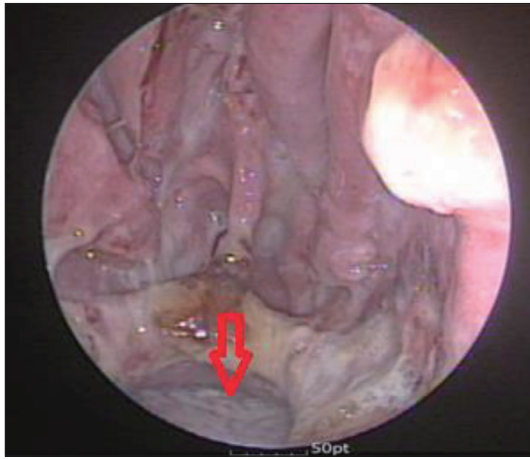


Fig. 3. After 1 month postoperative endoscopic view of nasal cavity. Cancer tissue clearly removed and healed palate mucosa. Arrowhead is tongue.

분하기 어려우나, 피막 외 주위조직으로의 침윤이나 주위 혈관이나 신경주위 침윤이 있을 경우에 기저세포선암증으로 진단할 수 있다. 선낭암증은 기저세포선암증에 비해 예후가 나쁘다는 점에서 감별이 중요한데, 고형 성장을 하는 선낭암증의 경우 특히 감별이 어려울 수 있다. 그러나 선낭암증의 종양 세포는 크기가 좀 더 일정하고 작으며 각진 모양을 보이고 과염색(hyperchromatic) 핵을 보인다는 점에서 기저세포선암증과 구별된다. 또한 기저세포선암증은 가장자리에서 울타리모양배열을 한다는 점에서 선낭암증과 차이가 있다.⁵⁾

이번 증례에서도 재발성 병변의 전절제검체의 경우 수술 전 시행한 화학방사선치료의 영향으로 인해 종괴의 일부 괴사 소견과 함께 염증세포의 침윤 및 섬유점액양사이질 변화를 보이고 있으며 종양세포는 종괴의

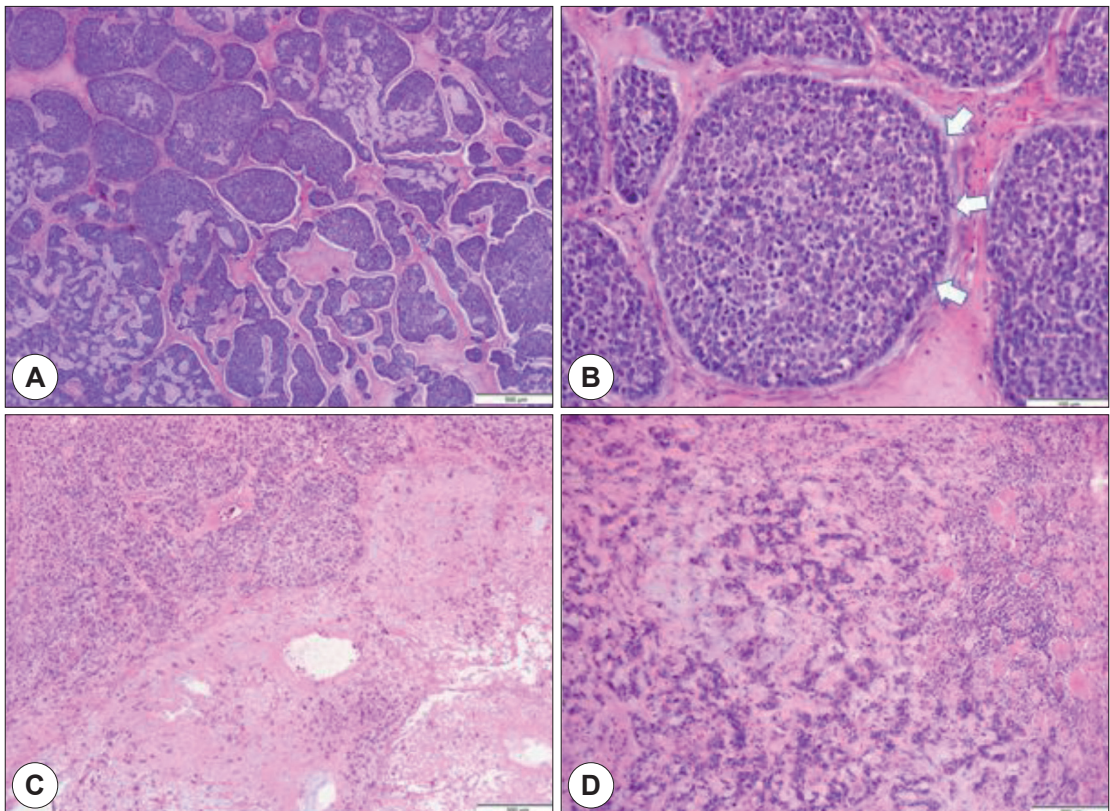


Fig. 4. Microscopic findings of the original tumor, first operated 10years ago (A, B) and the recurrent tumor (C, D). A : Tumor cells are mainly composed of solid and trabecular patterns (HE $\times 4$). B : The higher magnification reveals basoloid cells with scant cytoplasm, indistinct cell borders, and round to oval nuclei. Peripheral palisading (arrow) is observed (HE $\times 200$). C : Recurrent tumor shows extensive necrosis (right lower) due to chemo-radiation effect with viable tumor cells (left upper). D : The residual tumor cells are intermingled with inflammatory cells in the fibromyxoid stroma.

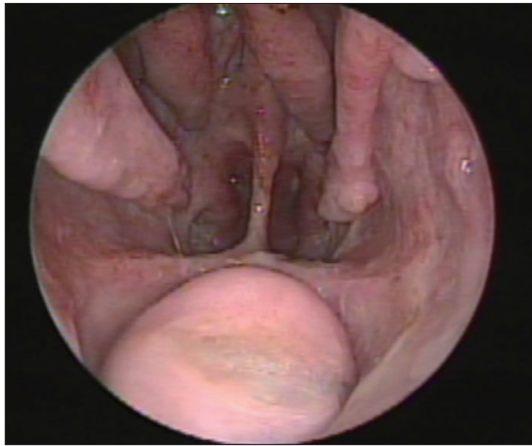


Fig. 5. Postoperative 17 months endoscopic view of nasal cavity. Image shows no evidence of tumor recurrence and good healing state of nasal cavity and hard palate.

가장자리에서 관찰되고 있었다(Fig. 4C, D).

기저세포선암종은 임상적으로 국소, 원격 전이가 드물며 병기에서의 N stage가 평균 생존율에는 큰 영향을 주지 않는다고 알려졌지만, 상대적으로 흔하지 않은 전립선, 비부비동이 원발부위일 경우 이하선, 악하선, 질 등의 경우보다 전체 생존율이 유의미하게 낮을 수 있다는 보고가 있다.²⁾ 치료는 절제변연 음성 수술적 절제가 주를 이루고 있으며, 술 후 보조적 방사선치료가 추천된다.^{1,6)}

이번 증례의 경우, 내원 당시 조직검사 전에는 재발한 선암종으로 생각되었으나, 10년 전 조직 표본과 재발한 조직 표본을 비교하여 리뷰한 결과, 선암종보다는 예후가 좋을 것으로 기대되는 기저세포선암종으로 확인되어, 보다 적극적인 수술적 치료를 환자에게 권할 수 있었다.

본 증례에서 시행한 안면중양부노출술은 비강, 부비동과 비인강의 병변이 크거나 악성일 때, 전통적인 부비동, 외안면 혹은 구개절개술을 통한 접근에 어려움이 있을 때, 시행할 수 있는데, 외부 안면에 흉터나 변형을 남기지 않고 비강, 부비동, 비인강 및 전두개저에 발생한

종양의 절제에 유용한 술 식이며 특히 병변이 본 증례와 같이 양측성일 경우 치료에 이상적인 접근방법이다.^{7,8)} 수술적 치료 후 저자들이 가장 우려한 비전정의 협착이나 안면 이상 감각, 안면부종, 유루증 등의 수술 후 합병증은 발생하지 않았고,^{7,9)} 비중격의 광범위한 절제에도 불구하고 안비와 같은 비배부의 변형이 크게 발생하지 않았으며, 경구개의 광범위한 골 결손에도 치료의 시기별 단계적인 밀폐장치의 맞춤형제작으로 환자의 음식섭취나 발성에 장애가 거의 발생하지 않았다. 이에 환자가 사회생활이나 일상생활로 빠른 복귀가 가능했다.

매우 드물지만 침샘기원의 종양이 비강 내에서도 발생할 수 있음을 인지하고 이를 감별하여 진단하고, 적극적인 치료를 하는 것이 중요하다고 생각되어 본 증례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어 : 기저세포선암종 · 안면중양부 노출술.

REFERENCES

- 1) Leivo I. Immunophenotype and molecular features: sinonasal adenocarcinoma update on classification. *Head Neck Pathol* 2016;10(1):68-74.
- 2) Gore MR. Basal cell adenocarcinoma: a population-based survival analysis. *Ann Med Health Sci Res* 2018;8:52-6.
- 3) Murty GE, Welch AR, Soames JV. Basal cell adenocarcinoma of the parotid gland. *J Laryngol Otol* 1990;104(2):150-1.
- 4) So SH, Kim SH, Rho YS, Lim HJ. A case of basal cell adenocarcinoma in the parotid gland. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1998;41(5):661-5.
- 5) Fonseca I, Soares J. Basal cell adenocarcinoma of minor salivary and seromucous glands of the head and neck region. *Semin Diagn Pathol* 1996;13(2):128-37.
- 6) Raychaudhuri S, Santosh KV, Kar M, Subramanya H. Basal cell adenocarcinoma of the nasal cavity. *Otorhinolaryngol Head Neck Surg* 2011;8 35-6.
- 7) Lee HS, Tae K, Kim KR, Jang YH. Midfacial degloving approach. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 1997; 40(4):490-4.
- 8) Allen GW, Siegel GJ. The sublabial approach for extensive nasal and sinus resection. *Laryngoscope* 1981;91(10):1635-9.
- 9) Casson PR, Bonnano PC, Converse JM. The midfacial-degloving procedure. *Plast Reconstr Surg* 1974;53(1):102-3.