

# A Clinical Study of the Warthin's Tumor of the Salivary Gland

Sangho Lim, Sunho Ryu, Kyengsuk Lee, Byungeon Hwang,  
Eun Jung Lee, Ki Hwan Hong and Yunsu Yang

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Chonbuk National University Medical School, Jeonju, Korea

## 타액선 Warthin's 종양에 대한 임상적 고찰

임상호 · 유순호 · 이정석 · 황병언 · 이은정 · 홍기환 · 양윤수

전북대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

Received November 29, 2010

Revised January 24, 2011

Accepted February 1, 2011

Address for correspondence

Yunsu Yang, MD

Department of Otolaryngology-

Head and Neck Surgery,

Chonbuk National University

Medical School,

20 Geonji-ro, Deokjin-gu,

Jeonju 561-712, Korea

Tel +82-63-250-1980

Fax +82-63-250-1986

E-mail yang2002@chonbuk.ac.kr

**Background and Objectives** The aim of this study was to define the clinical characteristics and treatment outcome of the salivary Warthin's tumor in order to work out a therapeutic strategy.

**Subjects and Method** The medical records of 64 patients who underwent surgery and were pathologically diagnosed with Warthin's tumor at our department from January 1997 to December 2009 were reviewed retrospectively.

**Results** There were 60 (94%) males and 4 (6%) females with an overall male-to-female ratio of 15 : 1. The average age was  $59.8 \pm 9.2$  years (range from 35 to 78). All tumors were found in the parotid gland. Of the 66 tumors, 31 (48%) occurred in the right side, 28 (44%) tumors occurred in left side, and 5 (8%) tumors occurred in bilaterally. A superficial parotidectomy was performed in 38 (59%) patients, lumpectomy in 25 (39%) patients and bilateral lumpectomy in one patient. There were 18 (28%) postoperative complications. The most common complication was transient facial palsy that occurred in 11 (17%) patients. Recurrence occurred in 2 (3%) patients, oneipsilaterally and the other contralaterally. All recurrences were found in patients who underwent superficial parotidectomy.

**Conclusion** Warthin's tumor has a very low recurrence rate with a benign nature. The study shows that lumpectomy is an effective surgical treatment for Warthin's tumor with an advantage of reducing facial nerve palsy and recurrence rate.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2011;54:213-6

**Key Words** Warthin's tumor · Lumpectomy · Parotid gland.

## 서론

타액선에 발생하는 Warthin's 종양은 papillary cystadenoma lymphomatosum으로도 불리며, 임상적으로 주로 고령의 남자에서 흡연과 관련되어 발생하는 것으로 알려져 있다.<sup>1)</sup> 하지만 여성 흡연의 증가로 인해 여성에서의 발생빈도가 증가하고 있다고 보고되고 있다.<sup>2,3)</sup> 발생학적으로 이 종

양은 타액선 중에서 이하선과 그 주위에 국한되어 발생하는 것으로 알려져 있지만 드물게 악하선이나 구강에서 발생한 경우도 보고되고 있다.<sup>4-6)</sup> 최근에는 이하선 양성종양에 대한 수술방법에서 고식적인 이하선 전엽절제술보다 보존적인 이하선 부분절제술이 시도되고 있고,<sup>7)</sup> 특히 Warthin's 종양의 경우 피막에 잘 싸여져 있어 종양적출술(enucleation)만을 시행해도 좋은 결과를 얻을 수 있다고 보고되고 있다.<sup>8)</sup> 저자들은 타액선 Warthin's 종양에 대한 임상적 특징과 사용

된 치료 방법을 분석하여 치료 결정에 도움을 주고자 하였다.

## 대상 및 방법

1996년 1월부터 2009년 12월까지 14년간 본원 이비인후과에서 수술적 치료를 받고 병리조직학적으로 Warthin's 종양으로 진단된 환자 64예를 대상으로 하였다. 환자의 의 무기록을 중심으로 성별, 나이, 임상증상, 유병기간, 종양의 위치 및 크기, 수술 방법, 수술 후 합병증, 그리고 재발 여부 등을 후향적으로 분석하였다.

## 결 과

### 성별 및 연령별 분포

성별 분포는 남자가 60예(94%), 여자가 4예(6%)로 남녀 비는 15 : 1이었다. 연령분포는 35세에서 78세였고, 평균연령은  $59.8 \pm 9.2$ 세였다. 60대 연령대에서 26예(41%)로 가장 많았고, 다음으로 50대가 19예(30%), 40대와 70대가 각각 9예(14%), 30대가 1예(2%) 순으로 나타났다(Table 1).

### 흡연 유무 및 임상증상

총 64예의 환자 중에서 흡연자는 41예(남 40예, 여 1예)(64%)이었다. 모든 환자에서 이하선 부위의 종물이 주증상이었고, 그 외에 다른 증상으로는 종물 위의 피부에 궤양과 통증이 있었던 경우가 1예에서 있었다.

### 종양의 발생 부위 및 크기

모든 환자에서 종양은 이하선에서 발생하였다. 우측에서 발생한 경우가 31예(48%), 좌측에서 발생한 경우가 28예(44%), 양측에서 발생한 경우가 5예(8%)였다(Table 2). 종양의 크기는 평균  $2.8 \pm 1.2$  cm였고, 3.0 cm 이상인 경우가 26예(41%)로 가장 많았고, 다음으로 2.0~2.9 cm인 경우가 22예(34%), 1.0~1.9 cm인 경우가 14예(22%), 1.0 cm 미만인 경우가 2예(3%) 순으로 나타났다.

### 증상 발현 후 수술까지의 기간

증상 발현 후 수술까지의 기간은 1년 미만이 40예(63%)로 가장 많았고, 다음으로 1년에서 2년 사이가 12예(19%), 2년에

서 3년 사이가 7예(11%), 3년 이상이 5예(8%)의 순으로 나타났다.

### 수술 방법

이하선 천엽절제술이 38예(59%)에서 시행되었고, 종물절제술(lumpectomy)은 25예(39%)에서 시행되었으며, 1예에서 양측 종물절제술(lumpectomy)이 시행되었다(Table 3).

### 수술 후 합병증 및 재발

수술 후 발생한 합병증은 18예(28%)였고, 안면신경마비가 11예(17%)로 가장 많았고, 다음으로 Frey 증후군이 4예(6%), 혈종이 2예(3%), 그리고 창상감염이 1예로 나타났다(Table 3). 안면신경마비는 일시적인 마비로 특별한 치료 없이 회복되었다. 안면신경마비는 이하선 천엽절제술을 한 경우에서 10예, 종물절제술을 한 경우에서 1예가 발생하였다. Frey 증후군은 4예 모두 이하선 천엽절제술을 한 경우에서 발생하였고, 증상은 경도로 약물치료가 필요한 경우는 없었으며, 마지막 관찰 시점까지 증상은 지속되었다. 혈종과 창상감염도 모두 보존적인 치료로 호전되었다.

수술 후 추적관찰 기간은 최소 0.5년에서 최대 12.5년이었고, 평균 관찰기간은  $4.7 \pm 2.8$ 년이었다. 추적관찰 기간 동안 재발한 경우는 2예(3%)였고, 동측에 발생한 경우가 1예, 반대측에 발생한 경우가 1예였다. 재발한 경우 모두 이하선 천엽절제술이 시행되었던 환자였고, 동측에서 재발한 경우는 첫 번째 수술 후 12년 되는 해에 발견되었고, 반대측에서 재발한 경우는 첫 번째 수술 후 4년 되는 해에 발견되었다.

## 고 찰

Warthin's 종양은 1895년 Hildebrand에 의해 처음으로 보고되었고, 1910년에 Albrecht와 Arzt에 의해 형태학적 영역으로 처음 기술되었으며, 1929년 Warthin이 2예에 대해

**Table 2.** Tumor location

Site	Parotid (%)
Right	31 (48)
Left	28 (44)
Both	5 (8)
Total (%)	64 (100)

**Table 1.** Distribution of patients (%)

Sex/Age	30-39	40-49	50-59	60-69	> 70	Total (%)
Male	1	9	17	25	8	60 (94)
Female			2	1	1	4 (6)
Total (%)	1 (2)	9 (14)	19 (30)	26 (41)	9 (14)	64 (100)

**Table 3.** Surgical procedures and post-operative complications

Surgical procedure	Number (%)	Transient facial palsy (%)	Frey's syndrome	Recurrence (%)	
				Ipsilateral	Contralateral
Superficial parotidectomy	31 (48)	10 (15.5)	4 (6)	1 (1.5)	1 (1.5)
Lumpectomy	28 (44)	1 (1.5)			
Bilateral lumpectomy	5 (8)				
Total (%)	64 (100)	11 (17)	4 (6)	2 (3)	

Papillary cystadenoma lymphomatosum으로 명명하였다.<sup>9)</sup> 이 종양은 타액선에서 다형선종 다음으로 많이 발생하는 양성종양으로 중년 백인남성에서 잘 발생하고 동양인에서는 드물게 발생한다고 보고되고 있다.<sup>10)</sup> 흡연과의 연관성이 높아 흡연자에서 Warthin's 종양이 발생할 위험도는 비흡연자에 비해서 14.6배 높았다고 보고하였다.<sup>1)</sup> 본 연구에서도 흡연자의 비율이 남성에서는 2 : 1로 높게 나타났다. Warthin's 종양의 성별 분포는 남녀비가 3.8 : 1로서 남성에서 발생 빈도가 높다고 알려져 있다.<sup>1)</sup> 본 연구에서는 다른 보고보다 더 남성에서 높은 발생 빈도를 나타냈다. Warthin's 종양의 평균 발생연령은 57.4세로 나이와 밀접한 연관이 있는 것으로 보고된다.<sup>1)</sup> 이번 연구에서도 평균 발생연령이 59.8세로 다른 보고와 비슷하였다.

Warthin's 종양은 임상적으로 종물은 서서히 자라고 이하부나 이개 전면에서 만져지는 경우가 많으며, 약 10% 정도에서는 양측성으로 발생하며 일측에 다발성으로 발생하는 경우도 5% 정도라고 보고된다.<sup>2,11)</sup> 안면신경을 침범하는 경우는 매우 드물고 때때로 동통이나 압박감과 같은 증상을 보일 수 있다.<sup>11)</sup> 본 연구에서는 모든 환자에서 이하선 종물이 주요 증상이었으며, 1예에서 이하선 결핵과 동반되어 통증과 종물위의 피부궤양의 증상이 있었다. 또한 양측성으로 발생한 경우는 약 8%로 다른 연구와 비슷하였지만 일측에 다발성으로 발생한 경우는 없었다.

Warthin's 종양의 발생기전은 아직 분명하게 밝혀지지 않았지만 배형성과정에서 이하선의 기원세포가 이동하여 발생할 수 있다고 보고되고 있다.<sup>11)</sup> 즉, 이하선은 타액선 세포들의 느슨한 배열에서 발생하며 늦게 피낭을 형성한다. 이러한 발달과정 중에 타액선관과 림프절이 혼합되고 후에 이하선의 피낭이 형성되어 이하선 내에 림프절이 봉입되고, 이곳에서 종양이 발생한다고 한다. 이하선이나 이하선 주위에서 발생한 종양의 경우 이 기전으로 설명이 되지만, 혈부점막, 구순, 구개, 후두 등의 부위에 존재하는 소타액선 부위에서 발생한 종양은 타액선관 상피의 이형성과 지연성 과민 면역반응에 의해 이차적으로 림프조직의 침윤에 의해 발생한다는 가설이 더 설득력이 있다. 본 연구에서는 모두 이하선에서 발생하였고, 이하선의 좌우측에 대한 편향성은 없었다.

Warthin's 종양은 형태학적으로 구형이나 난형, 또는 편평하기도 하며, 두껍고 강한 광택이 있는 막에 싸여져 있고, 크기는 보통 0.5~5.0 cm이며, 평균 크기는 3.0 cm 정도로 알려져 있다.<sup>12)</sup> 국내 보고에서도 종양의 평균 크기가 3.5 cm이었다고 하였다.<sup>11)</sup> 본 연구에서도 종양의 크기는 다른 보고에서와 같이 비슷한 크기를 보였다.

Warthin's 종양의 진단 방법으로는 병력 및 이학적 검사, 세침흡인세포검사와 함께 초음파검사, 전산화단층촬영, 또는 자기공명영상에 도움이 되며, 확진은 병리조직검사로 이루어진다. 초음파검사에서는 특징적으로 낭성(cystic, sonoluscent) 소견이 진단에 도움이 되며, 전산화단층촬영 소견에서는 이하선 미부에서 낭성부분이 있으면서 혼합종에서 볼 수 있는 석회화의 증거가 없는 경우 Warthin's 종양을 의심할 수 있다. 자기공명영상 소견에서 균질성의 경계가 분명한 종물이 관찰되면 어느 정도 Warthin's 종양의 추정진단이 가능하다.

Warthin's 종양의 치료는 수술적 제거가 원칙으로 이하선의 천엽에 국한된 경우는 천엽절제술을 시행하고, 천엽 및 심엽에 위치한 경우는 안면신경 분지를 보존한 후 전절제술을 시행하며, 양측성 종양의 경우에는 일정기간을 두고 한쪽씩 제거하지만 일부에서는 동시에 양측 종양제거술을 시행하기도 한다.<sup>9)</sup> 최근에 이하선의 영상진단술의 발달로 병변의 영상 소견만으로도 감별진단이 어느 정도 가능하고 병변의 정확한 위치와 다발성 여부를 확인할 수 있고, 종양의 특성상 피막에 둘러싸여 있어 천엽절제술 대신에 종양적출술 또는 이하선 부분절제술을 시행하여 좋은 결과를 얻었다는 보고가 있다.<sup>7,8)</sup> 본 연구에서는 연구기간 초기에 이하선 천엽절제술을 기본 수술로 시행하였고, 종양적출술과 부분절제술이 보고된 이후에는 종양의 위치와 다발성 등을 고려하여 수술 방법을 결정하였다. 저자들은 종양이 이하선의 심부에 위치하거나, 다발성으로 존재하는 경우, 또는 종양의 위치가 안면신경의 박리가 필요하다고 판단되는 경우에는 이하선 천엽절제술을 시행하였고, 종양이 다발성으로 이하선의 천엽에 위치하면서 안면신경의 박리가 필요하지 않는 경우에는 종양적출술을 시행하였다. 이하선의 부분절제술은 고식적인 이하선 천엽절제술과 기본적으로 동일하나 종양의 위치에 따라 이하선 천엽을 전부 제거하지 않고 종양과 주위의 정상 이하선 조직

을 일부 포함하여 제거하는 방법이다.<sup>7)</sup> Warthin's 종양이 대부분에서 이하선의 미부에 발생하는 경우가 많기 때문에 안면신경의 하지만을 박리하고 주위의 정상 조직을 포함하여 종양을 제거하는 이하선 부분절제술이 적절한 수술 방법이 될 수 있다. Choi 등<sup>8)</sup>은 Warthin's 종양 환자 20명을 대상으로 종양적출술(enucleation)을 시행하여 재발이 없이 좋은 결과를 얻었다고 보고하였다. 본 연구에서도 종양적출술을 시행한 경우에서 재발이 없이 좋은 결과를 얻을 수 있었다. 그리고 이하선 천엽절제술을 한 경우에서 2예의 재발이 있었는데, 동측에서 재발한 경우는 첫 번째 수술 후 12년 만에 발생하였고, 반대측에 발생한 경우는 재발보다는 새로운 병변으로 분류하는 게 타당하기 때문에 실제 재발은 1예로 생각할 수 있다. 이처럼 Warthin's 종양 수술 후 재발은 초기치료의 불완전한 절제로 인한 경우보다는 다른 부위에 발견되지 않은 종양이 커진 경우로 생각되고, 비교적 드물게 나타나기 때문에 현재 상태에서 수술 방법에 따른 재발률을 비교하는 것은 의미가 없으며, 장기간의 많은 증례가 모여진다면 비교해 볼 수 있을 것으로 생각된다.

Warthin's 종양에 대한 이하선 부분절제술과 종양적출술은 수술 시간의 단축, 안면신경 손상의 감소, Frey 증후군의 발생 가능성 감소, 이하선 부위의 함몰로 인한 미용적인 장애가 적으며, 타액선의 기능을 보존할 수 있다는 장점을 가지고 있다.<sup>7)</sup> 본 연구에서 수술 후 합병증인 일시적인 안면신경마비가 11예(17%)에서 나타났는데, 10예가 이하선 천엽절제술을 받았던 경우였다. 종양적출술을 받았던 경우에서 일시적인 안면신경마비가 나타날 가능성은 4%(1/25)로 천엽절제술의 발생률 26%(10/38)보다 아주 낮게 나타났다.

결론적으로 타액선 Warthin's 종양은 60대의 남자에서 주로 발생하고, 서서히 자라는 이하선 종물이 주증상이었으며, 발생위치는 모두 이하선이었다. 수술 방법으로는 이하선 천엽절

제술과 종양적출술이 주로 사용되었고, 두 방법 모두에서 재발은 드물었지만 수술 후 일시적인 안면신경마비와 같은 합병증은 이하선 천엽절제술을 받은 경우에서 높게 나타났다. 따라서 Warthin's 종양이 발생한 위치와 다발성 또는 양측성 등을 고려하여 적절한 수술 방법을 선택한다면 합병증이나 재발이 없이 좋은 결과를 얻을 수 있을 것으로 생각한다.

## REFERENCES

- 1) Woo JS, Lee HM, Kim HY, Choi JH, Jung JY, Jung KY, et al. Effect of smoking to Warthin's tumor of parotid gland. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2002;45(4):380-2.
- 2) Lamelas J, Terry JH Jr, Alfonso AE. Warthin's tumor: multicentricity and increasing incidence in women. Am J Surg 1987;154(4):347-51.
- 3) Monk JS Jr, Church JS. Warthin's tumor. A high incidence and no sex predominance in central Pennsylvania. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 1992;118(5):477-8.
- 4) Eveson JW, Cawson RA. Warthin's tumor (cystadenolymphoma) of salivary glands. A clinicopathologic investigation of 278 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1986;61(3):256-62.
- 5) Kukreja HK, Jain HK. Adenolymphoma of submandibular salivary gland. J Laryngol Otol 1971;85(11):1201-3.
- 6) Astor FC, Hanft KL, Rooney P, Benson CA, Flores CT, Lavertu P. Extraparotid Warthin's tumor: clinical manifestations, challenges, and controversies. Otolaryngol Head Neck Surg 1996;114(6):732-5.
- 7) Tae K, Lee HS, Hong DK, Park HK, Cho SH, Lee SH, et al. Partial parotidectomy as a conservative procedure for the parotid tumor. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2003;46(7):592-7.
- 8) Choi JO, Ju EJ, Kim WJ, Choi HY, Chu HR, Choi G, et al. Selection of surgical treatment for Warthin's tumor of parotid: experience in 20 cases. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 1999;42(4):501-4.
- 9) Lee HS, Tae K, Kim HS, Park CW. Three cases of multifocal Warthin's tumor. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 1997;40(10):1471-5.
- 10) Yoo GH, Eisele DW, Askin FB, Driben JS, Johns ME. Warthin's tumor: a 40-year experience at The Johns Hopkins Hospital. Laryngoscope 1994;104(7):799-803.
- 11) Choi G, Kim HY, Park HJ, Woo JS, Jung KY, Choi JO. Clinical study of Warthin's tumors. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 1996;39(11):1820-7.
- 12) Batsakis JG, el-Naggar AK. Warthin's tumor. Ann Otol Rhinol Laryngol 1990;99(7 Pt 1):588-91.