

A Case of Multiple Extraparotid Pleomorphic Adenomas in Subcutaneous Peri-Auricular Area

Jung Min Kim¹, Yoon Jung Kim², Choon Dong Kim¹ and Seung Woo Kim¹

¹Departments of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, ²Pathology, VHS Medical Center, Seoul, Korea

이개 주변부 피하층에 발생한 다발성 다형 선종 1예

김정민¹ · 김윤정² · 김춘동¹ · 김승우¹

중앙보훈병원 이비인후과,¹ 병리과²

Received February 11, 2013

Revised March 26, 2013

Accepted March 26, 2013

Address for correspondence

Seung Woo Kim, MD

Department of Otolaryngology-Head

and Neck Surgery,

VHS Medical Center,

53 Jinhwangdo-ro 61-gil,

Gangdong-gu, Seoul 134-791, Korea

Tel +82-2-2225-1384

Fax +82-2-2225-1385

E-mail entzzang1020@daum.net

Pleomorphic adenoma (PA) usually arises as a benign tumor of major salivary glands. However, multiple PAs on subcutaneous preauricular region are extremely rare. A 62-year-old man presented with a pre- and infra-auricular mass of 2 years duration. An excisional biopsy revealed a pleomorphic adenoma, which originated in the subcutaneous layer. He had no sign of recurrence so far. We report a unique case of multiple extraparotid pleomorphic adenoma with a literature review.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2013;56:314-6

Key Words Extraparotid · Pleomorphic adenoma · Subcutaneous.

서 론

다형 선종은 일반적으로 주 타액선에서 발생하며, 경구개, 연구개 등의 소타액선에서도 발생할 수 있다.¹⁾ 드물게는 구순부, 협부, 설부, 구인두 및 비강 등에서도 발생하지만,¹⁾ 전이개부의 피하층에 다발성으로 발생한 증례는 매우 드물다. 최근 저자들은 전이개부에 다발성으로 발생한 다형 선종을 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

62세 남자 환자가 2년 전 발생한 우측 전이개부와 하이개부에 생긴 다발성 종괴를 주소로 내원하였다. 본원 피부과에서 시행한 조직 생검상 광선각화증 소견을 보였고, 그 이후 크기의 증가가 있어 2개월 후 본과에 의뢰되었다. 신체 검사상 1~2 cm 크기의 7~8개 이상의 종괴 소견을 보였으며, 압통

은 없으나 주변과의 경계는 명확하고, 단단하고 고정되어 있는 성상이었다(Fig. 1). 고막이나 외이도에는 특이소견 없었으며, 안면신경마비 소견도 없었다. 경부 전산화단층촬영에서는 전이개와 이개 하방 부위에 다발성의 경계가 명확한 종괴의 소견을 보였다(Fig. 2). 세침흡인세포검사상 다수의 염증세포 등이 관찰되었다. 이상의 결과를 종합하여 이개 주변에 생긴 양성종물 의심하에, 절개 생검을 시행하였다. 양성종양을 확인하여 절개선을 비교적 작게 넣었고, 종괴 간의 위치가 비교적 떨어져 있고, 각각 위치하는 깊이도 상이하여 축지하면서 제거하였다. 소량의 출혈이 있었지만, 비교적 주변 조직과 잘 박리되었다(Fig. 3). 최종 조직검사상 다형 선종으로 보고되었다(Fig. 4). 술 후 6일째에 봉합사를 제거하였으나, 8일째에 수술 부위에 장액종 소견을 보여 1주일 정도 반복천자와 압박치료를 시행하였다. 추적관찰 1년이 지난 현재까지 재발소견 없이 외래에서 추적관찰 중이다.

고 찰

다형성 선종은 내피종, 연골양 한관종, 양성 혼합종 등의 여러 이름을 가지고 있다.²⁾ 대부분은 주타액선, 특히 이하선에서 생기는 것으로 알려져 있다. 드물게는 구강내 소타액선, 눈



Fig. 1. The external photo shows multiple bulging contours in pre-auricular and infra-auricular area.

물샘, 유방, 기관지의 점액선에서 발견되기도 한다.²⁾ 만약 종양이 피하에서 생긴 것이라면, 병리조직학적으로 다형성 선종과 같은 종류라고 하더라도 표피 혼합종이라 불리운다.²⁾ 육안 소견상 비교적 경계가 명확하고 견고한 회백색의 종괴로 나타나며, 조직 소견상 종양은 진피층에 위치하고 표피층은 침범되지 않으며, 상피성 세포 성분과 섬유성 간질조직으로 구성되어 있다.³⁾ 부위에 따라서 낭성 또는 관상구조를 나타내며 관상구조물은 상피세포로 이루어진 두 층으로 구성되어 있다. 내층을 구성하는 상피세포는 호산성 세포질과 갈색의 세포질 과립을 포함하고 있다.^{3,4)}

감별진단 하여야 하는 것은 염증을 동반한 표피낭종, 모든 종류의 선종, 암종, 육종 등이 있으며 이러한 질환과 감별하기 위해서는 세침흡인검사 혹은 전산화단층촬영, 자기공명영상 등이 도움이 될 수 있으며,²⁾ 최종 진단은 절제생검이 필요하다. 다형성 선종이 피부나 피하에 생긴 경우에는 보통 단발성으로 느린 속도로 성장하는 결절형태이지만, 이하선의 경우는 한 개의 선 내에 다발성으로 성장하는 경우가 많다.²⁾ 본 증례는 피하에 발생한 10개의 결절이었다. 피부과에서 시행한 생검은 피부 병변에 대한 것이었으며, 본과에서 수술한 병변은 이와는 무관한 병변으로 진단되었다. 수술시 주의사항은 경부의 여러

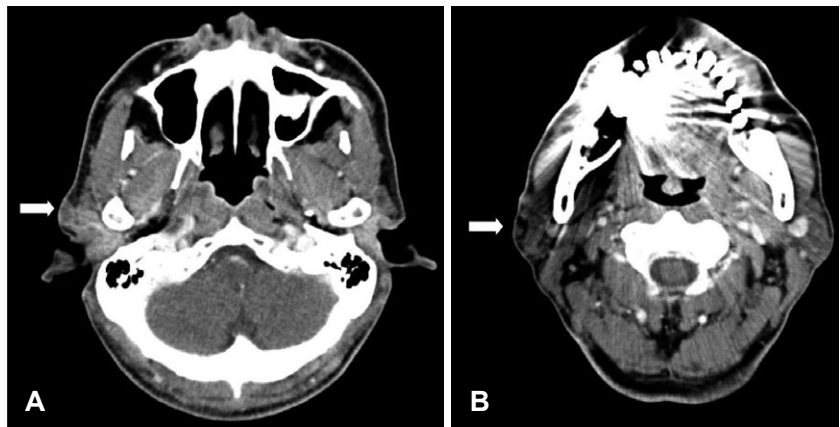


Fig. 2. Preoperative axial CT images. Non-enhanced CT scan shows about 2×1 cm sized, well-margined mass at external auricular level (A). Enhanced CT scan shows multiple nodules at the uvula level (B).

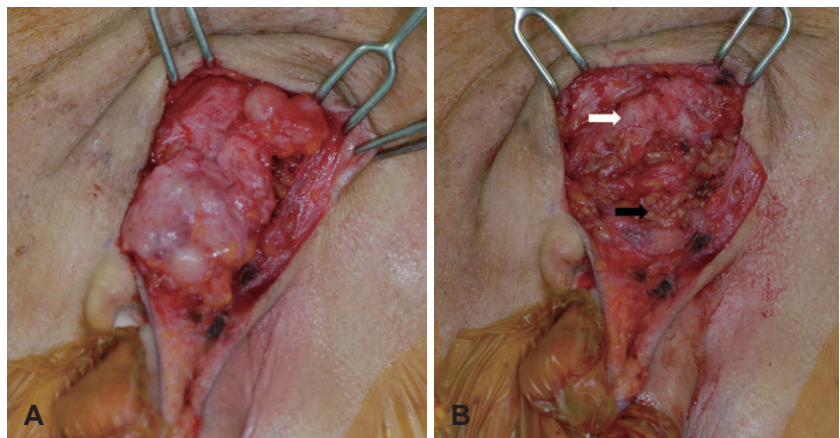


Fig. 3. Intraoperative finding. The mass is located at the pre- and infra-auricular area, superficial to the parotico-masseteric fascia (A). Postoperative finding. White arrow: parotico-masseteric fascia. Black arrow: subcutaneous fat (B).

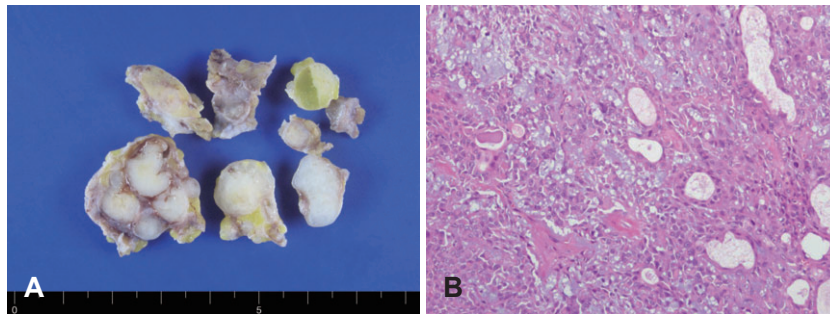


Fig. 4. This photograph shows gross and microscopic findings. The gross specimen shows white-gray colored multiple nodules. The cut surface shows pale yellowish appearance (A). This photograph shows mixed glands with epithelial and myoepithelial cells (H&E stain, $\times 200$)(B).

층에 종괴가 존재하고, 보통 작은 절개선을 넣으므로 종괴를 남기기 쉽다는 것이다. 조심스러운 촉진과 견인기구를 이용하여 병변을 주의 깊게 탐색해야 한다. 오랜 시간이 지나서 주변 조직과의 염증 반응으로서, 수술시 출혈이 많고, 박리가 어려운 경우도 있을 수 있다.

Nakamura 등⁵⁾은 우측 이하선, 동측의 귓볼, 동측의 측두 피부에 동시 발생한 다형성 선종을 보고하였다. 이 논문과 본 증례와 같이 다형 선종은 땀샘에서도 생길 수 있으며, 다발성으로 발생할 수 있다는 것을 고려해야 한다. Li 등⁶⁾은 50년간 중국의 3461예의 타액선 종양을 분석하였는데, 1392예가 악성이었으며 이 중 145예가 다형선종 유래암종으로 분류되었다. 이 중 81예가 이하선, 64예가 입천장, 4예가 악하선, 6예가 구개저에 위치하였다. 협부나 전이개부의 예는 없었고, 이는 전이개부의 다형 선종이 매우 드물다는 것을 시사한다.⁶⁾ Park 등⁷⁾은 이비인후과 영역에 발생한 양성 다형 선종의 임상적 고찰에서 76예 중 이하선에 50예, 악하선에 10예, 경부 및 구개부에 각각 6예, 기타 설하선, 구강저부, 후두부 및 이전부의 안면부 연부조직에 각각 1예의 발생빈도를 보고하였다.

다형 선종은 비록 양성종양이지만, 크기가 커지면서 주변 조직을 압박할 수 있기 때문에 완전한 수술적 적출이 필요하다. 만약 적출이 불충분하다면 재발할 수도 있고, 드물게는 악성

으로 변하기도 한다. 따라서 수술시 충분한 경계를 확보해야 하며 안면부위의 경우 미용적인 측면까지 고려해야 한다. 전이개부와 하이개부에 다발성으로 발생한 양성인 양상이 의심되는 종괴의 감별 진단에 다형 선종을 반드시 고려해야 하겠다.

REFERENCES

- 1) Dubey SP, Banerjee S, Ghosh LM, Roy S. Benign pleomorphic adenoma of the larynx: report of a case and review and analysis of 20 additional cases in the literature. *Ear Nose Throat J* 1997;76(8): 548-50, 552, 554-7.
- 2) Tsukuno M, Nakamura A, Takai S, Kurihara K. Subcutaneous pleomorphic adenomas in two different areas of the face. *Scand J Plast Reconstr Surg Hand Surg* 2002;36(2):109-11.
- 3) Kim SI, Lee JS, Yu TH. Pleomorphic adenoma of the external auditory canal. *Korean J Otolaryngol* 1989;32(5):945-9.
- 4) Kim YK, Park JH, Mun SY, Yoon YJ. A case of pleomorphic adenoma of the external auditory canal. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2001;44(1):105-7.
- 5) Nakamura S, Nakayama K, Ito F, Furuya K. Multiple mixed tumor (pleomorphic adenoma): a clinicopathological study. *J Dermatol* 1988; 15(3):268-72.
- 6) Li LJ, Li Y, Wen YM, Liu H, Zhao HW. Clinical analysis of salivary gland tumor cases in West China in past 50 years. *Oral Oncol* 2008; 44(2):187-92.
- 7) Park CS, Jung PG, Kim SC, Cho JS, Ahn HY, Cha CI. Benign mixed tumor in otolaryngologic field; a clinical study. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1993;36(3):399-404.