

A Case of Adenosquamous Carcinoma Arising from the Base of Tongue

Kyoo Sang Jo¹, Eun Ji Lee¹, Sook Hee Hong², and Jong Chul Hong¹

¹Departments of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, ²Pathology, Dong-A University College of Medicine, Busan, Korea

설기저부에 발생한 선편평세포암종 1예

조규상¹ · 이은지¹ · 홍숙희² · 홍종철¹

동아대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실, ¹ 병리학교실²

Received February 17, 2014

Revised March 31, 2014

Accepted April 1, 2014

Address for correspondence

Jong Chul Hong, MD, PhD

Department of Otolaryngology-

Head and Neck Surgery,

Dong-A University

College of Medicine,

26 Daesingongwon-ro, Seo-gu,

Busan 602-715, Korea

Tel +82-51-240-5423

Fax +82-51-253-0712

E-mail santa@dau.ac.kr

Adenosquamous carcinoma (ASC) of the head and neck is a rare malignancy. This entity was first described in 1968 by Gerugthy, et al. Nowadays, ASC is defined in the World Health Organization classification of tumors of the upper respiratory tract and ear as a malignant tumor with histological features of both adenocarcinoma and squamous cell carcinoma. We report a case of adenosquamous carcinoma arising from the base of tongue salvaged by transoral robotic surgery with review of literature. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2014;57(10):720-2

Key Words Adenosquamous carcinoma · Intraoral · Tongue base.

서 론

선편평세포암종은 선암종과 편평세포암종이 동시에 존재하는 종양으로 1968년 Gerugthy 등¹⁾이 처음으로 언급한 매우 드문 질환이다. 지금까지 이비인후과 영역에서 국내에서는 후두에서 발생한 3예, 경구개에서 발생한 1예, 구강설에 발생한 1예, 그리고 두피에서 발생한 1예가 보고된 바 있으나,²⁻⁷⁾ 설기저부에 발생한 예를 보고한 적은 없으며, 해외에서는 두경부 각 영역에 걸쳐 100예 이하의 증례보고가 있었다.⁸⁾ 저자들은 설기저부에 발생한 선편평세포암종 1예를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자는 57세 남자 환자로 목의 불편감을 주소로 타병원에서 진료 후 설기저부의 종괴를 발견하여 시행한 조직검사에서 편평세포암종으로 진단받고 본원 이비인후과로 전원되었다. 과

거력도 특이소견은 없었으며 음주 및 흡연력 또한 없었다. 내시경에서 구강 내 설기저부에 지름 2.5 cm 정도의 비교적 둥근 돌출형(fungating) 종괴가 관찰되었고(Fig. 1A), 경부 림프절은 만져지지 않았다. 이러한 돌출형의 양상은 통상적인 편평세포암종의 궤양형(ulcerative), 또는 궤양침윤성(ulceroinfiltrative) 양상과는 차이가 있어 육안적으로 편평세포암종 외에 다른 진단을 의심해 볼 수 있는 근거로서 고려해볼 수 있다. 경부 자기공명영상에서 설기저부에 2.5 cm 크기의 종괴가 관찰되었으며, 이 종괴는 T2 강조영상에서 고 신호강도를 보이며, T1 강조영상에서 중등도의 신호강도를 보이면서 불균등한 조영증강을 보였다. 전신전이를 확인하기 위해 fluorine-18 fluorodeoxyglucose positron emission tomography(F-18 FDG PET-CT)를 시행하였으며 전신전이의 증거는 발견되지 않았다. T2N0M0 병기의 설기저부암 의심하에 수술과 방사선 치료의 두 가지 치료법에 대한 설명을 하였으며 환자와 보호자가 방사선 치료를 하기 위해 총 31회에 걸쳐 6900 cGy의 방사선 치료와 cisplatin 항암치료를 병행하였다. 이후 경과관찰 하던

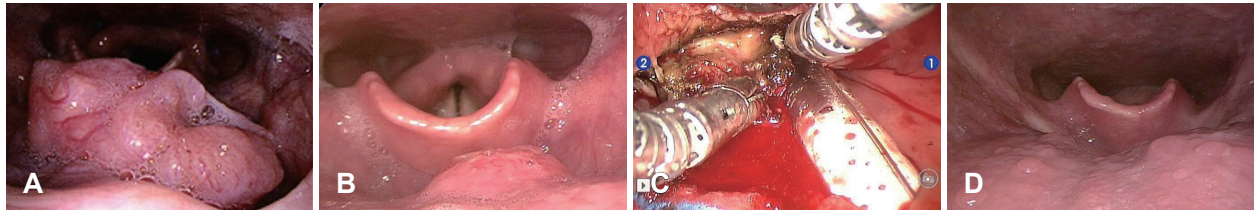


Fig. 1. Initial laryngoscopic finding of the patient. Fungating mass was founded at the base of tongue (A). 6 months after CCRT. Mass size was decreased, but still exist (B). Intra-operative finding. Dissection was performed using Davinchi® Robot System (C). 10 months after operation. There are no evidence of recurrence (D).

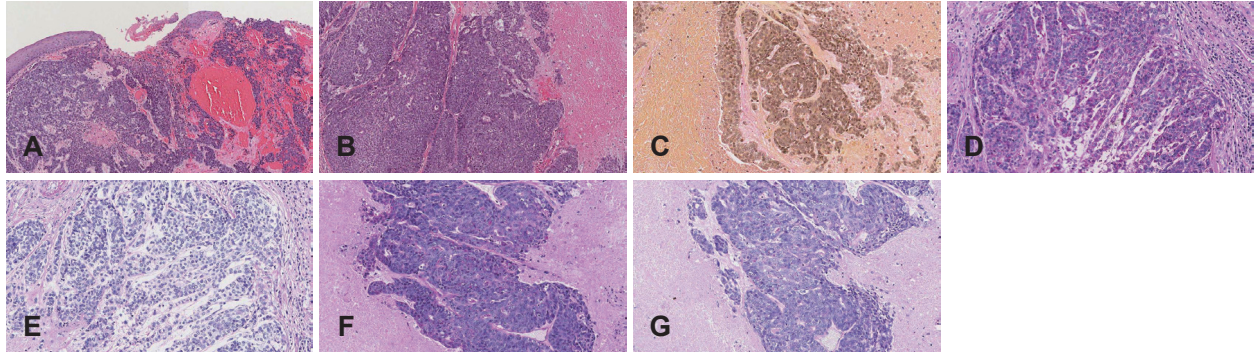


Fig. 2. The tumor tissue is deeply invading the submucosal layer. The margin of the squamous mucosa is transforming to neoplastic squamous cells infiltrating the underlying stroma (H-E stain, $\times 100$)(A). The deep layer of the tumor is just close to the dilated salivary gland ducts. The tumor is composed of solid cell nests with marked necrosis (right) and is surrounded by thin fibrous septa (left). A few luminal structures are formed by tumor cells (H-E stain, $\times 100$)(B). On mucicarmine stain, focal area of the tumor shows pink colored mucicarmine-positive materials in the lumen and in cytoplasm (Mucicarmine stain, $\times 200$)(C). On PAS stain, the tumor shows large amount of red-colored positive materials in the clear cytoplasm of the tumor cells, which are disappeared after diastase treatment (PAS and d-PAS stain, $\times 200$)(D and E) and Some of the tumor cells contain red colored PAS-positive materials in the cytoplasm which are persist after treatment of diastase (PAS and d-PAS stain, $\times 200$)(F and G).

중 약 6개월째 재촬영한 F-18 FDG PET-CT에서 설기저부에 경도의 대사증가를 보이는 지름 1.5 cm 정도의 작은 결절이 관찰되어 외래에서 조직검사를 시행하였으나 종양은 관찰되지 않았다(Fig. 1B). 그러나 임상적으로 이전 종괴의 위치와 발생부위가 동일하고 조직검사시 충분한 검체를 얻지 못했을 수도 있다고 판단하여 T1N0M0의 재발성 종양의 가능성을 염두에 두고 심부조직검사와 치료 목적으로 경구강 로봇 절제술(transoral robotic surgery, TORS)을 시행하였다(Fig. 1C). 수술 중 시행한 동결절편조직검사에서 선암종으로 나왔으며 절제면을 확인하며 종괴를 5 mm 이상의 충분한 변연을 가지고 절제하였다. 최종 병리와 판독상 선암종으로 나왔으며 절제면에서 종양은 발견되지 않았다. 하지만 이전 타병원에서 진단 받은 편평세포암종과 다른 조직검사 결과를 보여 병리과에 슬라이드 재검토를 의뢰하였다. 재검토 결과 선암종과 편평세포암종이 혼재되어 있는 양상을 보였으며 특수염색에서 mucicarmine 염색에 양성을 보이는 부분 및 PAS 염색에 양성을 보이는 부분이 확인되어 선양편평세포암종으로 최종 진단되었다(Fig. 2). 환자는 술 후 10개월이 경과한 현재까지 이학적검사나 영상의학적검사에서 재발의 징후 없이 경과 관찰 중이다(Fig. 1D).

고 찰

선양편평세포암종은 1968년 Gerughty 등¹⁾이 처음 언급한 종양으로 같은 병소 내에 선암종과 편평세포암종이 동시에 존재하는 매우 드문 질환이다. 선양편평세포암종은 구강, 비강, 후두, 식도에 주로 발생하며 위, 소장, 대장, 담낭, 간, 비장, 폐, 신장 등에서도 발생할 수 있다. 선양편평세포암종의 조직학적 발생기원에 대해서는 오랫동안 논란이 있었으며 부족한 증례수로 인해 현재까지도 그 기원에 대해 확실히 밝혀진 바는 없다. 일부 학자들은 소타액선의 관상피조직(minor salivary gland ductal epithelial tissue)에서 기원한다고 주장하며, 일부는 점막과 타액선의 관상피조직에서 동시(synchronously)에 종양이 생긴다고 주장한다.⁹⁾ 여러 문헌에서 후자가 더 넓게 인정되고 있으며,⁸⁾ 최근 Fonseca 등¹⁰⁾은 소타액선과 관계없이 오직 편평상피에서 기원한다고 주장하고 있다.

선양편평세포암종의 진단은 전적으로 조직검사결과에 의존하게 되며 선양편평세포암종(adenoid squamous cell carcinoma) 및 점액상피양암종(mucoepidermoid carcinoma)과의 감별이 필요하다. 선양편평세포암종은 편평세포암종의 아형으로 pseudogland를 형성하는 것이 특징이며, 특수염색(albican

blue, PAS, mucicarmine)에서 점액 생성을 볼 수 없다. 점액 상피양암종은 다양한 분포의 점액세포, 표피모양세포, 중간세포, 원주세포 및 투명세포로 구성되며 상피세포와 점액세포가 존재하나 상피세포에 이행성이 없고 각질화가 없다.¹¹⁾ 본 증례의 경우 편평세포암종 부분이 명확히 존재하며 각질화가 있고, mucicarmine 염색 양성인 부분이 존재하며, PAS 및 d-PAS 염색에서 diastase 처리 후 사라지는 부분(편평세포암종)과 지속되는 부분(선암종)이 있어 편평세포암종과 선암종의 모양을 모두 가진 선편평세포암종으로 최종 진단되었다.

선편평세포암종은 초기에 편평세포암종으로 오인되는 경우가 많은데 그 이유는 주로 조직검사시 병변의 얇은 부분만 채취되어 편평세포암종에 해당하는 부분만 검사하였기 때문일 것으로 보인다.^{9,12)} 본 증례는 타병원에서 편평세포암종으로 진단되었던 환자가 술 중 시행한 조직검사서 선암종으로 나왔던 증례이며 진단이 바뀐 것을 의심하여 슬라이드 재검토를 의뢰한 결과 선편평세포암종으로 진단되었다.

설기저부의 악성종양에서 원발병소에 접근하는 방법은 경구 접근법(transoral approach), 하악골 보존 접근법(mandible sparing approach), 경하악골 접근법(transmandibular approach)으로 크게 나누어 볼 수 있다. 그중 경구 접근법은 외부 절개를 가하지 않고 개구상태에서 종양을 절개하는 것으로 수술시간이 적게 걸리고 이환율이 낮다는 장점이 있으나 절제 후면과 절제 깊이의 경계에 대한 시야가 안 좋고 절제가 불완전해지기 쉽다는 단점이 있다. 이런 이유로 경설골 인두절개술(transhyoid pharyngotomy)이나 하악골 스윙절개법(mandibular swing approach) 등이 주로 사용되어 왔다. 그러나 최근 로봇을 이용한 경구 접근법이 소개되면서 경구 접근법을 통해서도 좋은 시야에서 종양을 제거할 수 있으며 치료결과 또한 기존의 치료 방법과 비교하여 대등한 종양학적 결과를 보인다는 보고가 있다.^{13,14)} 본 증례는 설기저부에 발생한 악성종양을 다빈치 로봇 시스템을 이용한 경구 접근법으로 제거한 경우로서 외부절개 없이, 3차원의 확대된 시야에서 충분한 변연을 가지고 병변을 제거할 수 있었다. 또한 본 증례처럼 항암방사선치료가 실패한 경우에는 광범위한 외부절개를 가하게 될 경우 회복과정에서 피부 파판에 문제가 발생할 가능성이 크기 때문에 경구 접근을 통한 제거가 더욱 의미 있을 것으로 보인다.

선편평세포암종의 임상경과는 주로 좋지 않은 것으로 알려져 있어 광범위한 절제가 치료의 원칙으로 생각되고 있다. 본 증례에서 역시 초치료로 항암방사선 치료 시행 후 6개월 만에 재발한 점이 선편평세포암종의 aggressive한 임상경과를 보여주는 부분이라고 생각해 볼 수 있다. Izumi 등¹⁵⁾은 2년 생존율을 50% 정도로 보고하였고, Alos 등¹¹⁾은 평균생존기간을 34.5개월로 보고하였으며, Schick 등⁸⁾은 3년 생존율을 52%로 보고하

였고, Yoshimura 등¹⁶⁾은 “active treatment”를 시행한 환자에서 5년 생존율을 61%로 보고하였다. 본 증례는 초 치료로 항암방사선치료를 시행한 후 6개월만에 재발한 환자에서 구제수술로 경부 절개 없이 TORS를 시행한 예로 약 10개월이 경과한 현재까지 재발의 징후는 없으나 장기간의 추적관찰이 필요할 것으로 생각된다.

REFERENCES

- Gerughty RM, Hennigar GR, Brown FM. Adenosquamous carcinoma of the nasal, oral and laryngeal cavities. A clinicopathologic survey of ten cases. *Cancer* 1968;22(6):1140-55.
- Choi CY, Chung JB, Ahn MS, Koh KS, Lim HJ. A case of adenosquamous cell carcinoma of the larynx. *Korean J Otolaryngol* 1987;30(1):165-8.
- Kim YM, Kim KS, Lee JY, Chu YC. A case of adenosquamous carcinoma of the larynx. *Korean J Otolaryngol* 1993;36(6):1349-55.
- Kwon SW, Choi SH, Choi YS, Sohn KR. A case of adenosquamous carcinoma of the larynx. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2000;43(9):1005-7.
- Kim YM, Cho JI, Lee SJ, Kim JM. A case of adenosquamous carcinoma ex pleomorphic adenoma of hard palate. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2001;44(11):1231-4.
- Ko JS, Kim JP, Park JJ, Woo SH. A case of adenosquamous carcinoma of the posterior occipital scalp. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2012;55(2):123-7.
- Cho YA, Yoon HJ, Hong SD, Lee JI, Hong SP. Adenosquamous carcinoma of the Oral cavity: Case Report. *Kor J Oral Maxillofac Pathol* 2009;33(5):283-6.
- Schick U, Pustaszneri M, Betz M, Ghadjar P, Demiroz C, Kaanders JH, et al. Adenosquamous carcinoma of the head and neck: report of 20 cases and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2013;116(3):313-20.
- Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR, Goode RK. Adenosquamous carcinoma. In: Ellis, GL, Auclair PL, Gnepp DR, editors. *Surgical pathology of the salivary glands*. Philadelphia: WB Saunders;1991. p.455-9.
- Fonseca FP, Ramos LM, Vargas PA, de Almeida OP, Lopes MA, Santos-Silva AR. Oral adenosquamous carcinoma: evidence that it arises from the surface mucosal epithelium. *Histopathology* 2012; 61(2):321-3.
- Alos L, Castillo M, Nadal A, Caballero M, Mallofre C, Palacin A, et al. Adenosquamous carcinoma of the head and neck: criteria for diagnosis in a study of 12 cases. *Histopathology* 2004;44(6):570-9.
- Scully C, Porter SR, Speight PM, Eveson JW, Gale D. Adenosquamous carcinoma of the mouth: a rare variant of squamous cell carcinoma. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1999;28(2):125-8.
- Moore EJ, Olsen SM, Laborde RR, Garcia JJ, Walsh FJ, Price DL, et al. Long-term functional and oncologic results of transoral robotic surgery for oropharyngeal squamous cell carcinoma. *Mayo Clin Proc* 2012;87(3):219-25.
- Kim SH. Transoral robotic surgery: up to date. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2012;55(10):616-22.
- Izumi K, Nakajima T, Maeda T, Cheng J, Saku T. Adenosquamous carcinoma of the tongue: report of a case with histochemical, immunohistochemical, and ultrastructural study and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1998;85(2):178-84.
- Yoshimura Y, Mishima K, Obara S, Yoshimura H, Maruyama R. Clinical characteristics of oral adenosquamous carcinoma: report of a case and an analysis of the reported Japanese cases. *Oral Oncol* 2003;39(3):309-15.