비강에서 발생한 비타액형 비장형 저악성 선암종

건국대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실

정문식 · 최창환 · 박민우 · 유명상

A Case of Non-Intestinal Type Low-Grade Adenocarcinoma of the Nasal Cavity

Moon Sik Jung, MD, Chang Hwan Choi, MD, Min Woo Park, MD and Myeong Sang Yu, MD Department of Otorhinolaryngology. University of Konkuk. School of Medicine. Chungiu. Korea

- ABSTRACT -

Malignant tumors of the nasal cavity and paranasal sinuses are rare tumor of head and neck accounting for less than 1% of all head and neck malignancies and adenocarcinomas of various types accounting for 10 to 20% of primary neoplasms. Adenocarcinomas of the nasal cavity and paranasal sinuses can be classified as salivary and non-salivary types by World Health Organization, the latter are further split into intestinal and non-intestinal types. The majority of the non-intestinal type adenocarcinomas are of a histological low-grade and they show an excellent prognosis. We present the clinical feature, pathology, treatment, and prognosis of the non-intestinal sinonasal adenocarcinoma with a review of the literature. (J Clinical Otolaryngol 2016;27:349–353)

KEY WORDS: Adenocarcinoma · Nasal · Sinonasal · Nonsalivary · Nonintestinal.

서 론

비강 및 부비동에 발생하는 악성종양은 전체 두경부 종양의 1% 정도로 드물며, 선암종은 비부비강의 원발 악성종양 중 10~20%를 차지하는 것으로 보고되어 있다.¹⁾ 세계보건기구(WHO)에 따르면 비강과 부비동에 발생하는 선암종은 타액형과 비타액형으로 구분되는데, 비타액형은 다시 장형과 비장형으로 나눌 수 있다. 저자들은 36세 여자환자의 우측 비강에서 발생한 비타액성 비장형의 저악성 선암종(non-salivary type non-intestinal type

low-grade adenocarcinoma)을 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

특이 과거력 없는 36세 여자환자로 수개월 전부터 시작된 우측 비폐색 및 비출혈을 주소로 내원하였다. 내시경 검사에서 우측 비강의 중비갑개와 비중격 사이의 상부에서 불규칙한 표면의 종괴가 관찰되었고, 중비갑개는 종물로 인해 외측으로 편위 되어 있으며(Fig. 1) 반대편 비강은 정상적인 소견을 보였다.

종물의 정확한 위치와 분포를 확인하기 위해서 부비동 전산화 단층촬영과 자기공명영상을 시행하였다. 전산화단층촬영에서 우측 비강 내에 불균일하게 조영 증강이 되는 종괴가 관찰되었고, 인접하고 있는 우측 사골동 및 비중격을 침범한 듯한 양상을 보였다(Fig. 2A, B). 자기공명영상에서는 T1 강조영상에서 저신호 강도를 보이

논문접수일: 2016년 8월 30일 논문수정일: 2016년 9월 27일 심사완료일: 2016년 11월 9일

교신저자: 유명상, 27376 충북 충주시 국원대로 82

건국대학교 충주병원 이비인후과

전화: (043) 840-8280 · 전송: (043) 843-6165

E-mail: dryums@kku.ac.kr

고(Fig. 3A) T2 영상에서는 저신호 및 고신호 강도가 혼재된 양상으로 보이며(Fig. 3B), Gadolinium을 이용한 T1 조영 증강 영상에서는 불균일하게 조영 증강을 보이는 종물이 관찰되었으며 두개 내로 직접 칩범한 소견은 보이지 않았다(Fig. 3C). T2 강조영상에서 사골동 내일부 고신호 강도를 보여 부비동염과의 감별이 필요할 것으로 판단되었다. 영상학적 검사 소견을 종합한 결과 비강 내용종 또는 편평상피세포암종 등 악성종양이 의심

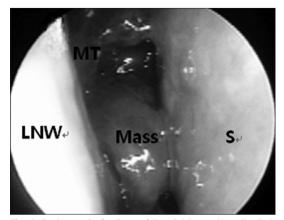


Fig. 1. Endoscopic findings of the right nasal cavity. Polypoid and irregular surface mass is observed in superomedial to the middle turbinate. MT: middle turbinate, S: septum, LNW: lateral nasal wall.

되었고 비갓만을 침범하고 주변 림프절 및 전이 소견 관 찰되지 않아 TNM staging 상 T1N0M0에 해당되었다. 수술 전 외래에서 내시경 하 종괴의 일부분 떼어내어 조 직검사 시행하였고, 저악성 선암종의 조직학적 소견 확 인되었다. 술 전 영상학적 검사에서 안구 및 두개 내 등 의 주변 중요 구조물로의 침범한 소견은 보이지 않았으 므로, 조금 더 정확한 조직학적 진단과 절제를 위하여 전 신 마취 하에 내시경 접근으로 수술을 시행하였다. 종양 은 주변 조직과의 유착 없이 비교적 쉽게 제거 되었으며 기시부는 상비도에 근접한 중비갑개의 외측 상방 부위 였다. 그 외 중비갑개, 상비갑개 및 비중격 등은 표면적 으로 정상적인 소견 관찰 되었다. 종양 세포의 잔존을 방 지하기 위해 불규칙한 모양을 띄고 있는 종물이 시작된 것으로 보이는 줄기(stalk)과 인접해 있던 정상점막 소견 으로 보이는 주변조직까지 절제연을 비교적 넓게 잡아 절제하였고, 동결절편 검사 상 경계부위의 종양소견 없어 수술을 종료하였다.

술 후 조직검사 상 종양은 유두상 성장(papillary growth)을 보이고 유사분열이 관찰되지 않는 무핵(bland nuclei) 및 작은 샘들이 충충이 배열된 세포(small glands lined by a single layer of uniform cells) 소견 보여 비타 액형 비장형의 저악성 선암종(non-salivary type non-

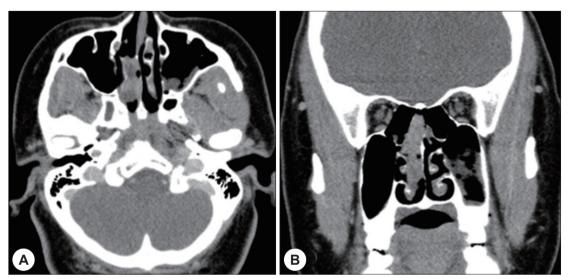


Fig. 2. Computed tomographic scan. Contrast-enhanced axial (A) and coronal (B) computed tomography scans show heterogeneously enhancing soft tissue mass in the right nasal cavity. Tumor invasion to the right ethmoid sinus and nasal septum is suspicious.

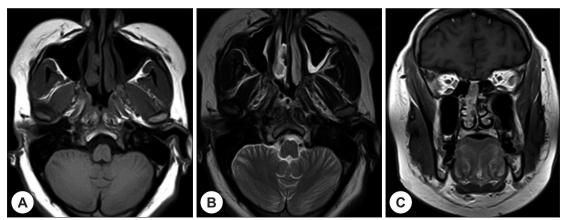


Fig. 3. Magnetic resonance imaging shows similar findings with computed tomography scans. Axial T1-weighted images show low signal intensity (A), T2-weighted image demonstrates high signal intensity in the right nasal cavity (B) and Gadolinium-enhanced coronal T1-weighted images show heterogeneously enhancing mass in the right nasal cavity (C).

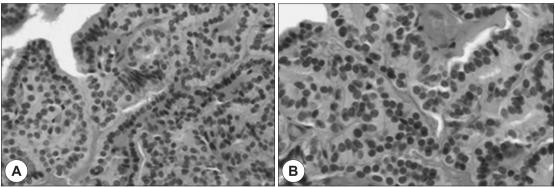


Fig. 4. Tubulopapillary low-grade non-intestinal adenocarcinoma. A papillary growth pattern with tubular formations in the stroma. A single layer of cuboidal to columnar cells with round uniform nuclei, bland nucleoli. Hematoxylin and Eosin stain \times 250 (A) & \times 400 (B).

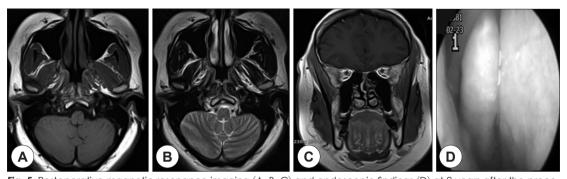


Fig. 5. Postoperative magnetic resonance imaging (A, B, C) and endoscopic findings (D) at 2 years after the procedure demonstrate no evidence of recurrence. Axial T1-weighted (A), axial T2-weighted (B), Gadolinium-enhanced coronal T1-weighted (C).

intestinal type low-grade adenocarcinoma)으로 최종 진단되었다(Fig. 4). 부비동에서 발생한 저능급 선암종의 경우 완전절제 시 국소침습으로 인한 재발이나 전이가 매우 드문 것으로 알려져 있어 방사선 종양학과와 종양내과 협의 하에 추가적인 방사선치료나 항암치료는 시행하지 않았다. 수술 후 매년 자기공명영상검사 시행하였고 재발 소견 없음을 확인하였다. 또한 수술 후 6개월까지는 매달, 이 후로는 3개월마다 비내시경 검사 시행하며 수술 부위 및 비강 내 특이사항 없이 정상점막 확인되며 재발 없이 외래 추적 관찰 중이다(Fig. 5).

고 찰

비강 및 부비동에 발생하는 선암종은 전체 암종의 $10\sim20\%$ 를 차지하며, 표면상피나 장점액선의 예비세포 기원으로 생각된다. 선암종의 대부분은 선양 낭성 암종 (adenoid cystic carcinoma)과 같은 타액형 종양이나 드물게 타액형 종양과 구별되는 조직학적 소견을 보이는 선암종이 발생할 수 있으며, 이는 비타액형 종양으로 불리다.²⁾

세계보건기구(WHO)에서 2005년에 발표한 비부비강 선암종(sinonasal adenocarcinoma) 구분법에 의하면 비 타액형 선암종(non-salivary type adenocarcinoma)은 저 악성 및 고악성 선암종으로 구분하고 있다. 다른 구분법 으로는 저악성(low-grade), 유두상(papillary), 장상(colonic), 고형상(solid), 점액성(mucinous), 혼합형(mixed type)의 6가지 조직학적 군으로 나누기도 한다.³ 저악성 선암종은 규칙적인 원주형 세포로된 작고 균일한 선구 조로 구성되며 유사분열도 거의 없다. 반면 고악성 선암 종은 세포의 유두상 증식, 세포의 다형성 및 유사분열을 특징으로 한다.⁴

저악성 선암종의 임상 양상은 성(sex) 또는 특정 인종에 대한 연관성은 떨어지며, 환자가 호소하는 증세는 주로 비강 폐쇄 및 비출혈로 발현된다. 발생하는 평균 연령은 37~53세이다. 주로 사골동(40%), 비강(25%), 상악동(20%)에 침범하며, 직업 및 환경적인 영향은 밝혀진바없다.³⁾ 진단은 임상양상을 바탕으로 조직학적 소견으로 확진하는데, 주요 임상 증상인 비강폐쇄, 비출혈 및 콧물증세 만으로는 진단에 도움이 되지 않으므로 부비동 전

산화단층촬영 및 자기공명영상검사를 포함하여 조직검 사가 필요하다.¹⁾ 추가적으로 비부비강 선암종의 진단에 면역조직화학표지자가 유용한 검사로 이용되고 있는데, 비타액형 선암종 중 장형은 CK20, CDX-2, MUC2에 발 현되나 비장형에 속한 저악성 선암종은 위 표지자에 발 현되지 않는다.^{3.5)}

비강 내 비타액형 선암종은 매우 드물기 때문에 그 치 료와 예후에 대해서 아직 많은 데이터가 존재하지 않지 만, 최근까지는 저악성(low-grade) 선암종의 치료의 원 칙은 수술적 완전 절제다. 주로 국소 침범을 하며 광범위 절제는 필요하지 않다. 고악성(high-grade) 선암종일 경 우 수술적 절제 및 보조 방사선 치료가 필요할 수 있다. 고악성 선암종에 비해 저악성 선암종은 재발 및 사망률 이 월등히 낮은 것으로 보고되고 있다. 6 비강 및 부비동 에 발생하는 비타액형 저악성 선암종은 대부분 코막힘. 콧물, 비출혈의 단순 임상양상으로 발현한다. 또한 저악 성 선암종을 단순 선종으로 오인할 가능성도 있어 주의 를 요한다. 본 증례의 경우 비강에서 발생한 비타액형 저 악성 선암종(non-salivary type low-grade adenocarcinoma)에 해당하며 추가적인 방사선 치료나 항암 치료 없이 내시경적 절제 수술 만으로도 만족할 만한 결과를 얻을 수 있었다. 수술 후 비교적 양호한 예후가 예상되 나, 주기적인 추적관찰과 내시경, 그리고 영상학적 검사 가 재발의 조기 진단에 필수적이라 하겠다.

중심 단어: 선암종 · 비강 · 부비강 · 비타액형 · 비장형

REFERENCES

- Cathro HP, Mills SE. Immunophenotypic differences between intestinal-type and low-grade papillary sinonasal adenocarcinomas: an immunohistochemical study of 22 cases utilizing CDX2 and MUC2. Am J Surg Pathol 2004; 28:1026-32.
- 2) Bhaijee F, Carron J, Bell D. Low-grade nonintestinal sinonasal adenocarcinoma: a diagnosis of exclusion. Annals of Diagnostic Pathology; 2011. p.181-4.
- 3) Lee CG, Park YJ, Lee JY. A case of papillary intestinal type sinonasal adenocarcinoma of the nasal cavity. Korean J Otorhinolaryngol-Head neck Surg 2013;56:310-3.
- 4) Blumberg JM, Vining EM, Prasad ML. Low-Grade, Nonintestinal nonsalivary sinonasal adenocarcinoma associated with and exophytic schneiderian papilloma: a case report. International J Surgical Pathol 2015;662-6.
- 5) Leivo I, Bishop J, Franchi A. Sinonasal adenocarcinoma:

update on classification, immunophenotype and molecular features. Head Neck Pathol 2016;10(1):68-74.

6) Leivo I. Update on Sinonasal adenocarcinoma: classifica-

tion and advances in immunophenotype and molecular genetic make-up. Head Neck Pathol 2007;1(1):38-43.