

## 이도선 종양

인제대학교 서울백병원 해부병리과\* 및 서울대학교 의과대학 병리학교실

강 윤 경\* · 지 제 근

### Ceruminous Gland Tumors

- 5 cases report -

Yun Kyung Kang\*, M.D. and Je G. Chi, M.D.

Department of Pathology, Seoul Paik Hospital\* Seoul National University College of Medicine

Tumors of the ceruminous gland are rare. However, careful histologic evaluation and classification are necessary for the proper treatment and ultimate prognosis.

We present 5 cases of ceruminous gland tumors. Case 1 (73/M) and case 2 (52/M) were adenoid cystic carcinoma. They presented with protruding masses in the left external auditory canal for several months. Case 3 (76/M) was a mucoepidermoid carcinoma of auditory canal, who presented with right ear swelling. The mass recurred 3 years after the surgical resection and combined radiation therapy. Case 4 (60/F) and case 5 (21/F) were ceruminous adenoma, which showed diffuse or focal areas of glandular structures with one- or two-layer of eosinophilic columnar to cuboidal cells and sometimes with myoepithelial cells. These tumors showed non-infiltrative growth pattern and lack of mitosis, and had no capsule. (**Korean J Pathol 1994; 28: 414~419**)

**Key Words:** Ceruminous gland, Adenoid cystic carcinoma, Mucoepidermoid carcinoma, Ceruminous adenoma, Ceruminoma, Ear

## 서 론

이도선(ceruminous gland)은 외이도 바깥쪽 1/3인 연골성 부분을 덮고있는 피부의 진피층에 분포하는 변형된 아포크린선으로서 2층의 상피세포로 구성되어 있다<sup>1)</sup>. 안쪽 세포는 풍부한 호산성의 세포질을 가지는 원주형 또는 입방형 세포로서 세포질 내에 황갈색의 지질색소 입자등과 전분효소 감수성 periodic acid-Schiff(PAS) 양성인 과립들을 함유하고 있고 단두분비에 의해 첨단부 세포질이 떨어져 나가는 양상을 보인다. 바깥쪽은 분비에 관여하는 근상피세포들이 규칙

적으로 배열하고 있다<sup>2)</sup>. 이도선 기원의 종양은 매우 드물며 과거에는 '이구종(ceruminom)'이라는 일반적인 명칭이 사용되었는데, 이는 임상가들에게 종양의 해부학적 발생위치와 맞는 명칭이라는 점에서 널리 받아들여져 왔었다<sup>3)</sup>. 그러나 종양의 악성도 및 예후와는 연관성을 맺을 수 없으므로 다른 부위의 한선 종양에서처럼 조직형에 따른 분류들이 제시되어 왔다<sup>3-5)</sup> (Table 1).

저자들은 1984년부터 1992년까지 서울대학교병원 병리과에서 진단되었던 이도선 종양 5예의 병리학적 및 임상소견을 기술하고자 한다.

## 증 례

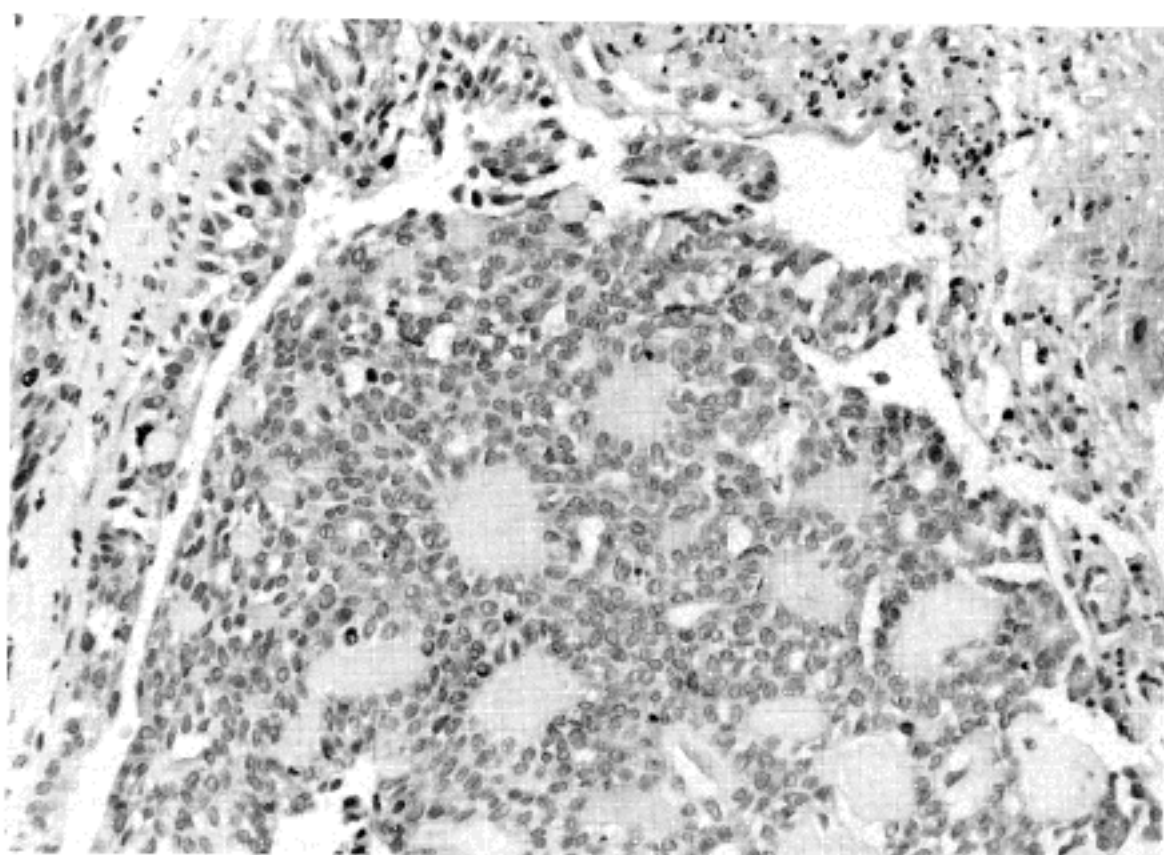
### 증 례 1.

73세 남자가 2달전부터 발생한 왼쪽 귀 주변부 종창

접 수: 1993년 10월 25일, 게재승인: 1994년 5월 2일  
주 소: 서울시 종로구 연건동 28번지, 우편번호 110-744  
서울대학교병원 병리과, 지제근

**Table 1.** Classification of neoplasms of the ceruminous glands

	Wetli et al <sup>3)</sup>	Pulec <sup>4)</sup>	Michaels <sup>5)</sup>
Benign	Ceruminous adenoma Pleomorphic adenoma	Adenoma	Adenoma(Ceruminoma) Syringocystadenoma papilliferans Chondroid syringoma
Malignant	Adenoid cystic carcinoma Ceruminous adenocarcinoma	Mucoepidermoid carcinoma Adenoid cystic carcinoma Adenocarcinoma	Mucoepidermoid carcinoma Adenoid cystic carcinoma Adenocarcinoma



**Fig. 1.** Tumor cells are characterized by dark, basophilic nuclei and scanty cytoplasm. The spaces formed by tumor cells contain faint hyaline substance.

을 주소로 내원하였다. 진찰상 외측 외이도에서 압통성의 충혈된 돌출성 종괴가 발견되었다. 임상적으로 염증성 종괴를 의심하였고 생검을 시행하였다. 조직학적으로 종양은 대부분이 선모양 구조를 하고 있었으며 일부에서 관상 구조가 섞여 있었다. 종양세포들은 작으나 질은 호염기성 핵과 소량의 세포질을 가지고 있었고 핵소체는 간혹 뚜렷하게 관찰되었다. 세포분열상은 드물었지만 축점성 괴사가 동반되었다. 선양구조의 가운데에는 유리질화된 호산성 물질이 있었으며 주변 간질에서도 유리질화가 관찰되었다(Fig. 1). 이 종양은 선양낭성암종(adenoid cystic carcinoma)으로 진단하였으며 환자는 더 이상의 치료를 받지 않았다.

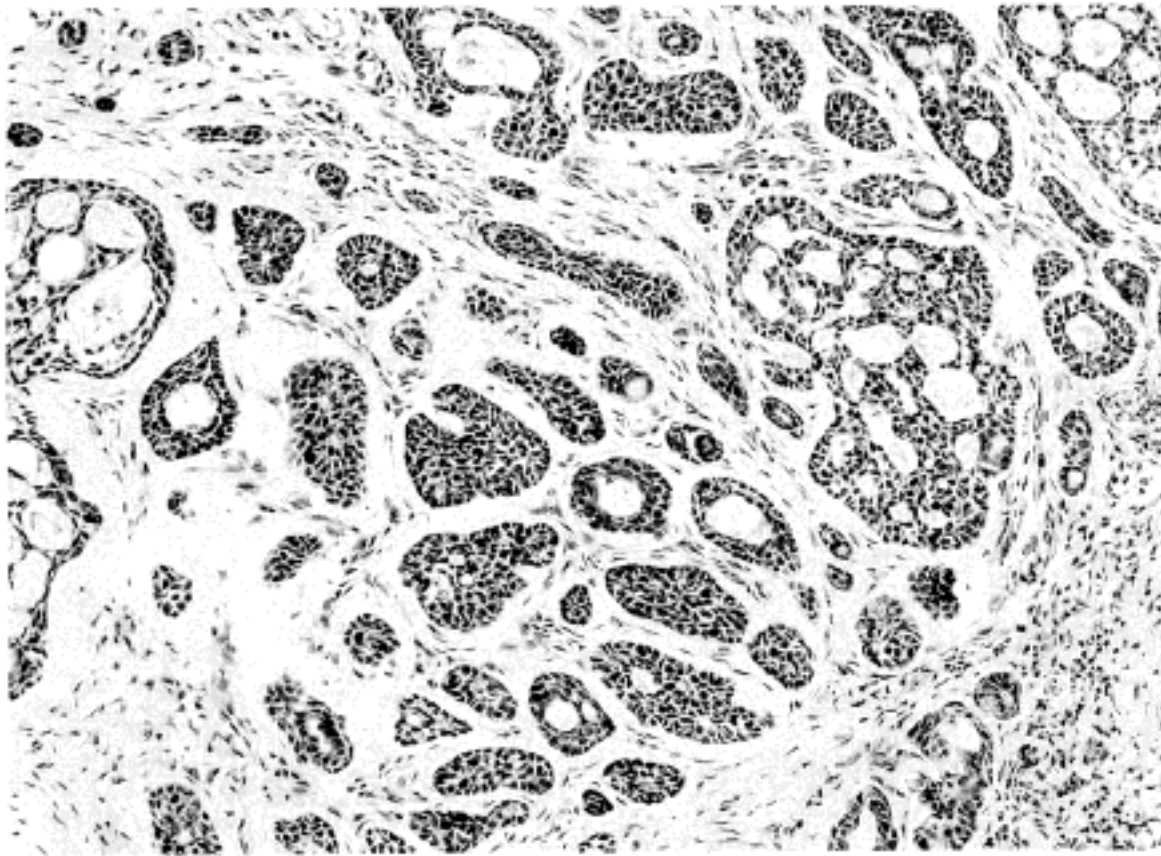
### 증례 2.

52세 남자가 내원 3개월전에 발견한 왼쪽 외이도의 종괴를 주소로 내원하였다. 진찰소견상 용종형 종괴가 왼쪽 외이도의 2/3가량을 채우고 있었고 다른 이상소

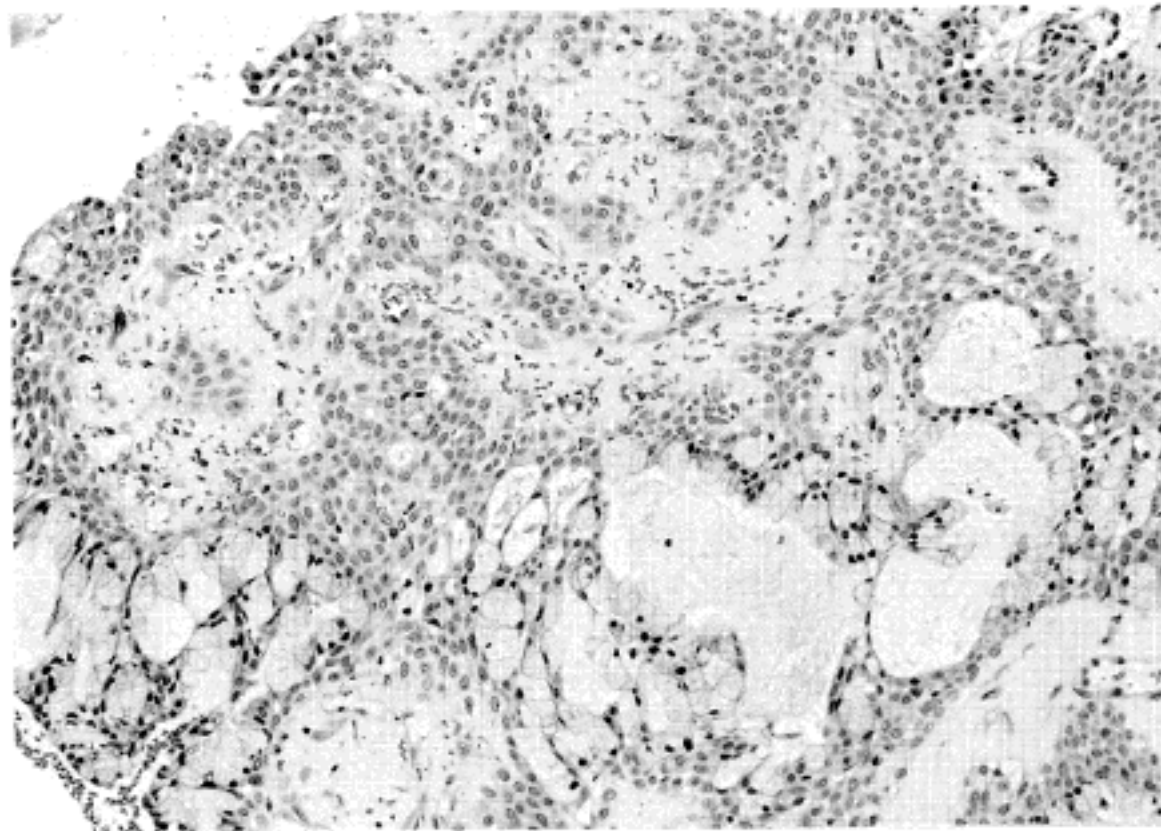
견은 없었다. 펀치 생검을 시행하였다. 조직학적으로 조양은 유리질화된 두꺼운 섬유간질내에 관상, 선양 및 체모양의 배열이 혼합된 양상이었으며 종양세포들은 증례 1에서와 마찬가지로의 소견이었다. 선모양구조의 가운데 공간에는 열은 호산성의 점액성 물질들이 있었다. 진단은 선양낭성암종이었다(Fig. 2).

### 증례 3.

76세 남자가 수년전부터의 혈성 이루, 이통 및 청력 감소를 주소로 내원하였다. 오른쪽 외이도를 완전히 막고 있는 종괴가 발견되었고 임상적으로 외이도의 악성종양을 의심하여 생검을 시행하였다. 조직학적으로 종양은 유두상 배열을 하고 있었다. 증식된 상피세포들은 점액을 함유한 세포, 중간형 세포 및 소수의 표피양세포들이었는데, 중간형세포들은 특징적으로 풍부한 호산성 세포질을 가지고 있었다. 간혹 미세낭성 변화들이 관찰되었다(Fig. 3). 이 종양은 점액표피양 암



**Fig. 2.** Mixed cribriform and tubular pattern is seen within the hyalinized fibrous stroma. Tumor cells are arranged in nests that contain eosinophilic hyaline material.



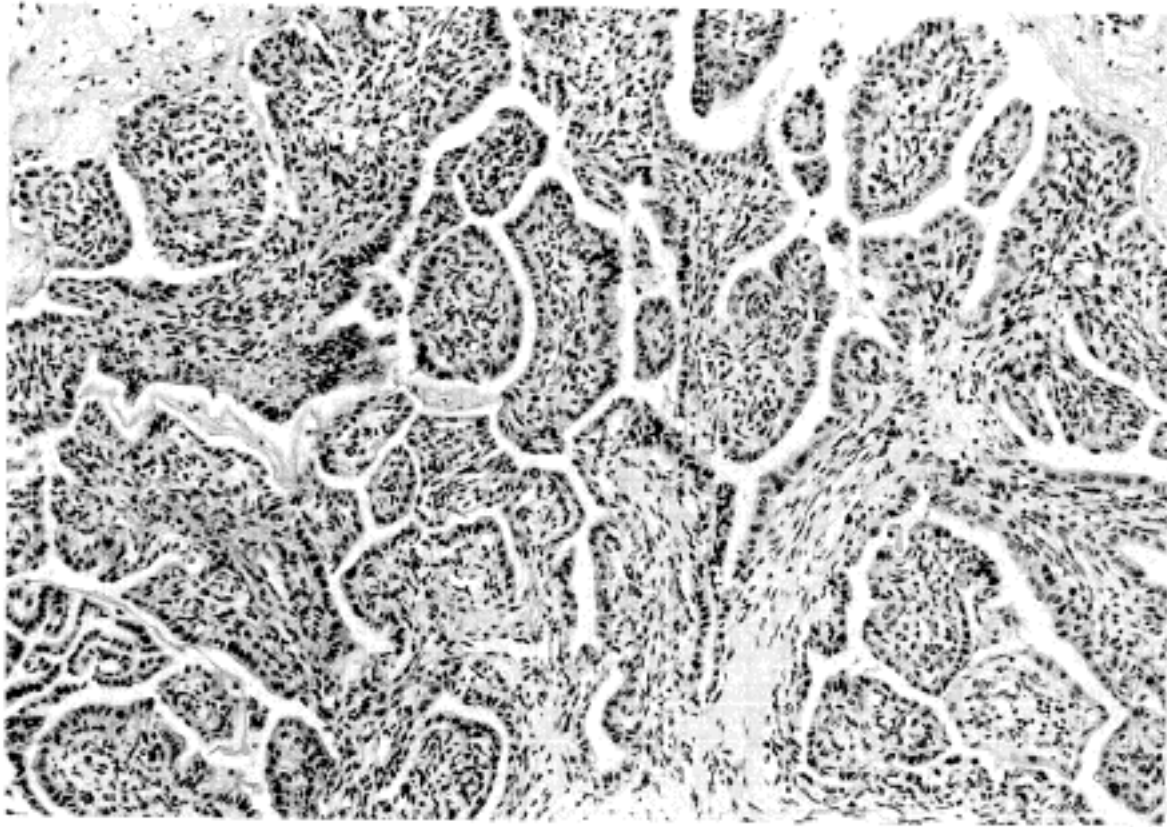
**Fig. 3.** Three cellular compositions, mucous, intermediate and epidermoid cells are noted. Focal microcystic changes are also seen.

종으로 진단하였으며 외과적 절제 후 방사선 치료를 받았다. 치료 후 임상증상이 호전되었고 종괴의 크기도 감소되었으나 3년 후 다시 종괴가 커졌고 재생검에서도 마찬가지로의 소견이었다.

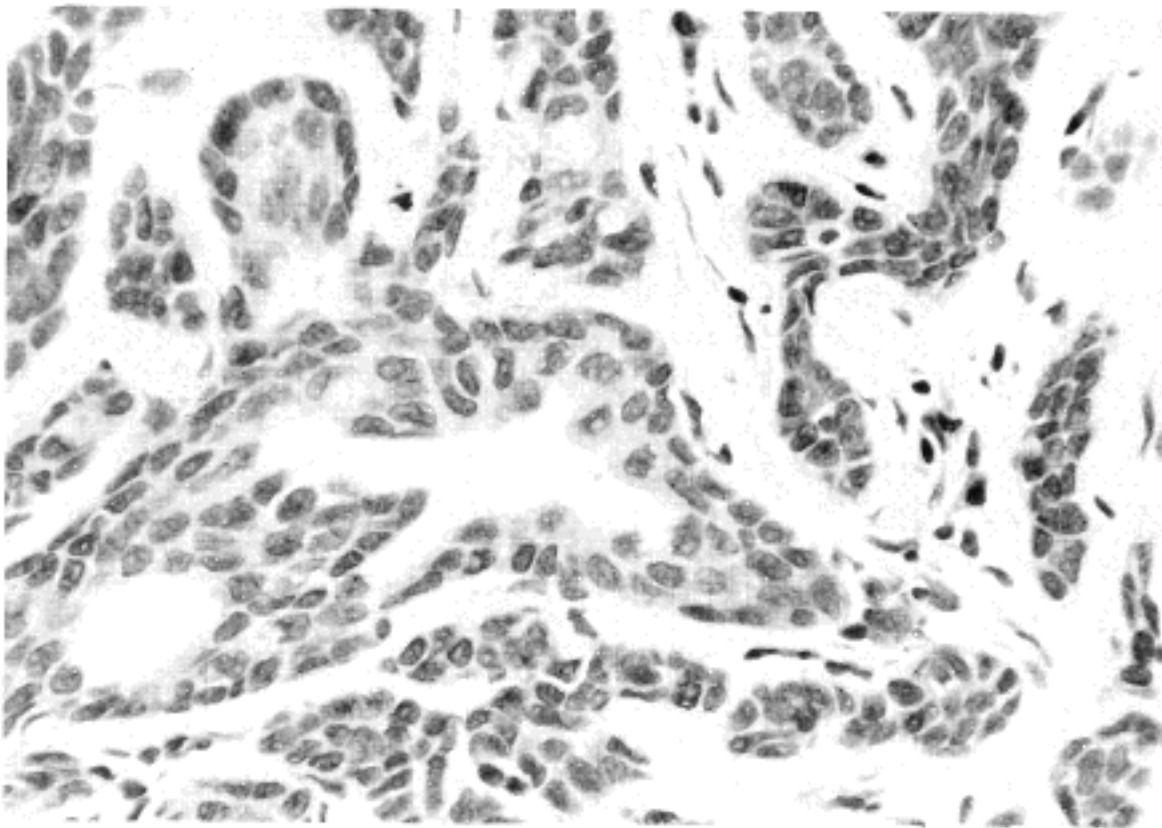
**증례 4.**

60세 여자가 지난 10년간 서서히 진행된 현기증, 청력소실 및 안면마비를 주소로 내원하였다. 진찰상

오른쪽 외이도를 가득 메운 종괴가 발견되었고 방사선 검사에서 종양은 유양돌기동과 기저부의 두개골까지 퍼져있었으며 침습성 성장양상을 보여 임상적으로 연골육종등의 악성종양을 의심하였다. 편치생검 후 광범위 종양절제술을 시행하였다. 수술시 종괴는 주변조직과 섬유성 유착을 보였지만 비교적 잘 박리되었다. 조직학적으로 섬유성 간질내에 다양한 크기의 선들의 증식이 있었고, 양성확장 및 그 내부로의 유두상 성장이



**Fig. 4.** The tumor shows papillary arrangement with proliferation of covering epithelial cells. Tumor cells are columnar to cuboidal with plenty eosinophilic cytoplasm.



**Fig. 5.** Tumor cells form cords or gland-like spaces within the fibrous stroma. Two layers of lining cells are often encountered. The inner layer reveals plenty amount of eosinophilic cytoplasm.

관찰되었다(Fig. 4). 상피세포의 층은 1겹 또는 2겹이었는데, 2겹인 곳에서 안쪽 세포들은 키가 큰 입방형으로서 균일한 크기였고 풍부한 호산성 세포질내에 전분효소 감수성인 PAS 양성과립 및 지질색소 입자들을 함유하기도 하였다. 내강쪽의 세포질막은 원개형을 이루면서 일부에서 단두분비의 양상이 관찰되었다. 바깥쪽은 키가 작은 입방형의 세포들이 둘러싸는 듯한 배열을 하고 있었다. 세포들의 이형성은 관찰되지 않았고 세포분열상은 전체시야 중 1개만이 관찰되었다.

주변조직과의 경계가 확실하지 않았으나 두꺼운 섬유성 간질에 의해 둘러싸여 있었고 종양의 침윤성 성장의 소견은 없었다. 인접한 이도선은 소엽성 증식 및 내강확장의 소견을 보였다. 이 종양은 이도선선종(ceruminous adenoma)으로 진단하였고 환자는 수술 후 3년동안 재발되지 않고 있다.

**증례 5.**

21세 여자가 8년전부터 시작된 이루를 주소로 내원

하였다. 2년전부터는 증상이 심해지면서 이명 및 청력 소실이 동반되었다. 진찰상 왼쪽 외이도의 종괴가 발견되었고 전산화 단층촬영에서 1.5 cm 크기의 연부조직 음영을 가지는 종괴가 외이도 바깥쪽 연골부에 위치하고 있었으며 골이나 연골로의 침습소견은 없었다. 광범위절제술을 시행하였다. 종괴는 육안적으로 회백색의 용종형이었고 조직학적으로는 섬유화된 간질에 균일한 모양을 갖는 세포들이 삭 또는 지주모양으로 배열하고 있었으며 일부에서는 선양구조를 보이기도 하였다. 종양을 이루는 세포들은 일부에서 PAS 양성 과립을 가지는 풍부한 호산성 세포질 및 단두분비의 양상이 관찰되어 이도선 기원의 선종을 시사하였다 (Fig. 5). 주변의 이도선이 소엽성 증식과 함께 일부에서는 종양내로 포착되고 일부에서는 종양으로 이행하는 소견을 보였다. 환자는 수술 부위에 피부 이식을 받았고 3년간의 추적에서 재발되지 않았다.

### 고 찰

외이도의 바깥쪽 1/3 연골부의 얇은 피부에는 에크린한선이 없고 모낭, 피지선 및 변형된 아포크린선의 일종인 이도선이 발달되어 있다. 외이도의 선조직에서 생기는 종양은 매우 드물며 대부분 이루, 이명 및 청력감퇴등이 국소증상으로 발현한다. 보통 매우 천천히 자라기 때문에 수 년동안 발견되지 않는 경우가 많고 작은 용종으로 발견되는 경우가 대부분이며 드물게 유양돌기염의 증상으로 발현하기도 한다<sup>6)</sup>.

과거에는 이들에 대한 조직학적 구분을 하지 않고 양성종양으로 간주하여 이구종(ceruminoma)이라는 일반적인 명칭을 사용하였으며 임상적으로 악성경과를 보이는 경우는 변종 또는 예외적으로 생각하였기 때문에 치료방침 및 경과를 예측하는 데 모호한 점이 많았다<sup>7-9)</sup>. 1964년 Cankar 등<sup>10)</sup>은 7종례의 이도선 기원 종양을 기술하면서 주변 조직으로 침습성 성장을 하는 경우는 예후가 나쁘기 때문에 따라서 이러한 경우는 악성종양으로 취급해야 한다고 하였으며 그들은 조직학적으로 종종 선양 또는 원주상의 소견을 보인다고 기술하였다.

이도선 종양의 분류로서 1972년 Wetli 등<sup>3)</sup>은 이도선선종과 다형성선종을 양성종양으로 그리고 선양낭성암종과 이도선선암종을 악성종양으로 분류하였는데 이 분류가 이후의 종례보고들에서 널리 받아들여지고 있다<sup>11-13)</sup>. 1977년 Pulec<sup>4)</sup>도 이미 Wetli 등<sup>3)</sup>이 제한한 분류와 비슷한 분류를 하였고 치료방침과 예후의 결정을 위하여 정확한 병리학적 검색이 중요함을 강조하였다. Michaels의 분류<sup>5)</sup>에서는 아포크린선 종양의 하나인 유두상 한낭선종이 추가되었지만 기본 골격은 비슷하다.

이도선 종양의 분류에 있어 어려운 점은 종양의 조직형이 한선 및 타액선 종양과 겹치기 때문에 조직발

생에 대한 해석이 다양하기 때문이다<sup>1)</sup>. 이도선이 변형된 아포크린선으로서 분비세포와 근상피세포의 2층으로 되어 있으므로 비슷한 구조를 가지는 한선 및 타액선과 비슷한 종양이 발생하는 것이라 생각된다.

1984년부터 1992년까지 서울대학교병원에서는 총 24예의 외이도 종양이 병리학적으로 검색되었는데 그중 5예가 이도선 종양으로 진단되었던 바 이들은 2예가 선양낭성암종, 1예가 점액표피양 암종 그리고 2예가 점액표피양 암종 그리고 2예가 이도선선종이었다. 그동안 보고된 바에 의하면 이도선 종양중에서 선양낭성암종의 빈도가 가장 높으며 이는 임상경과상 매우 오랜기간 후에도 재발 또는 전이되는 경우가 있어서 임상적으로 중요하며 오랜기간 동안의 주의깊은 추적이 필요하다<sup>1,3-6)</sup>. 이도선선종은 아포크린선종과 유사한 조직소견을 보이며 양성종양이지만 불완전하게 절제된 경우 간혹 재발할 수 있다<sup>14)</sup>. 이도선선암종은 조직학적으로 악성도가 높은 경우 이도선선종과의 구분이 용이하지만 분화가 매우 좋은 경우 주변조직으로의 분명한 침습이 있어야 진단할 수 있다. 종례 4의 경우는 방사선 검사에서 주변 골조직으로의 침습소견이 의심되었고 조직소견에서 심한 섬유화가 동반되었지만 분명한 침습성 성장이 관찰되지 않아 이도선선종으로 진단하였다. 종례 5는 종양세포들이 기저세포양 또는 선양 구조를 가지는 선양 기저세포상피종의 형태를 보였지만 부분적으로 아포크린 분비의 형태가 관찰되고 인접 이도선이 종양으로 이행하는 소견을 관찰할 수 있어 이도선선종으로 진단하였다.

국내에서 보고된 이도선 종양은 선양낭성암종 2예<sup>15,16)</sup> 및 다형성선종 1예<sup>17)</sup>가 있으며 이<sup>18)</sup>에 의해 보고된 이구선종은 기술된 조직소견이 이도선선종에 맞는다고 생각한다.

이도선 종양 중 타액선 종양의 조직형을 보이는 선양낭성암종, 점액표피양 암종 및 다형성 선종을 진단할 때는 주의 깊은 임상적 검사를 통하여 인접한 이하선의 종양이 외이도로 국소 침윤한 가능성을 배제하여야 한다<sup>3-5,9)</sup>.

양성 이도선 종양의 경우는 국소적 절제만으로 완치가 가능하고 악성종양의 경우는 근치적 광범위 절제술이 요구되며 수술후 방사선 치료가 중요한 역할을 한다는 보고도 있다<sup>6)</sup>. 본 보고예들의 경우 비록 모든 예에서 완전한 추적조사가 실시되지는 않았지만 이도선선종의 경우는 양성경과를 보였고 악성종양의 경우는 절제 후 방사선치료에도 완치되지 않은 종례가 있음을 알 수 있었다.

저자들은 외이도에서 발생한 선양낭성암종 2예, 점액표 피양 암종 1예, 이도선선종 2예를 포함한 5예의 이도선 종양의 병리학적 및 임상적 소견을 기술하였다. 이도선 조양은 매우 드물게 발생하지만 병리학적 검색과 분류 기준에 의한 정확한 진단이 환자의 치료 방침 결정과 예후 관정을 위해 필요 하다고 판단되었다.

## 참 고 문 헌

- 1) Friedman I. *Nose, Throat and Ears. In: Symmers W st C eds. Systemic Pathology, 3rd ed, vol 1. New York: churchill Livingstone, 1986: 321-7.*
- 2) Lever WF, Lever GS. *Histopathology of the Skin. 6th ed. Philadelphia: J.B. Lippincott, 1983: 22-78.*
- 3) Wetli CV, Pardo V, Millard M, Gerston K. *Tumors of ceruminous glands. Cancer 1972; 29: 1169-78.*
- 4) Pulec JL. *Glandular tumors of the external auditory canal. Laryngoscope 1977; 87: 1601-12.*
- 5) Michaels L. *Ear, Nose and Throat Histopathology. 1st ed. London; Springer-Verlag 1987; 59-61.*
- 6) Hicks GW. *Tumors arising from the glandular structures of the external auditory canal. Laryngoscope 1983; 93: 326-40.*
- 7) Leitner MJ. *Adenoma of the ceruminous glands. Report of a case. Am J Clin Pathol 1952; 22: 466-71.*
- 8) Batsakis JG, Hardy GC, Hishiyama RH. *Ceruminous gland tumors. Arch Otolaryngol 1967; 86: 66-9.*
- 9) Anagnostou GD, Papademetriou DG, Segditsas TD. *Ceruminous gland tumors: Report of three cases. Laryngoscope 1974; 84: 438-43.*
- 10) Cankar V, Crowley H. *Tumors of ceruminous glands. A clinicopathological study of 7 cases. Cancer 1964; 17: 67-75.*
- 11) Hageman MEJ, Becker AE. *Intracranial invasion of a ceruminous gland tumor. A follow-up of 12 years. Arch Otolaryngol 1974; 100: 395-7.*
- 12) Lynde CW, Mclean DI, Wood WS. *Tumors of ceruminous glands. J Am Acad Dermatol 1984; 11: 841-7.*
- 13) Yamamoto E, Tabuchi K, Mori K. *Ceruminous adenoma in the osseous external auditory canal. J Laryngol Otol 1987; 101: 940-5.*
- 14) Lever WF, Lever GS. *Histopathology of the Skin. 6th ed. Philadelphia: J.B.Lippincott 1983: 542-89.*
- 15) 이원상, 박용익, 이경, 이광길, 이기범. *외이도 선낭포성 종양의 1예. 대한이비인후과학회지 1985; 28: 433-7.*
- 16) 서한규, 최건, 이광선, 황순재. *외이도 선낭포성 종양. 대한이비인후과학회지 1990; 33: 617-22.*
- 17) 김상일, 이정삼, 유태현. *외이도 이구선에서 발생한 혼합종 1예. 대한이비인후과학회지 1989; 32: 945-9.*
- 18) 이기영. *외이도에 발생한 이구선종. 대한이비인후과학회지 1982; 25: 543-6.*