

# 이하선의 양성 림프 상피낭 1예 보고

서울대학교 의과대학 병리학교실

정진행 · 강경훈 · 지제근

## Benign Lymphoepithelial Cyst

— A case report —

Jin Haeng Chung, M.D., Gyeong Hoon Kang, M.D. and Je G. Chi, M.D.

Department of Pathology, Seoul National University College of Medicine

An intraparotid benign lymphoepithelial cyst is a rare disease characterized by unilateral painless swelling of parotid region. The histogenesis is controversial. Surgical excision is recommended for diagnosis and curative treatment. We present a case of benign lymphoepithelial cyst arising in a patient with neurofibromatosis. A 46-year-old woman presented with a slowly growing multilocular cystic mass in the left cheek. The cystic mass measured 4 cm in maximal outer diameter and the cystic wall was thick and yellowish pale to gray, soft with well circumscribed margin. Microscopically, the multilocular cyst was lined by stratified squamous epithelium for the most part and underlying lymphoid tissue aggregates with follicles and sharply demarcated from adjacent salivary parenchyma which is of normal appearance and without lymphoid aggregates. Since this lesion is absolutely benign, it is important to separate this benign cyst from cystic salivary gland tumors. (Korean J Pathol 1996; 30: 551 ~ 553)

**Key Words:** Benign lymphoepithelial cyst, Parotid gland, Neurofibromatosis

타액선의 양성 림프 상피낭(benign lymphoepithelial cyst)은 드문 질환으로서 경부의 양성낭의 2%를 차지하며 이하선 절제조직에서는 1% 미만으로 알려져 있다<sup>1</sup>. 일관된 역학 자료는 구할 수 없지만 이 질환은 빈도에 있어서 성별에 따른 유의한 차이는 보이지 않으며 대개 이하선 부위에 일측성의 무통성 종괴로 나타나는 경우가 대부분이다. 그 조직학적 기원에 대하여 많은 논쟁이 있었는데<sup>2,3</sup> 1958년 Bernier와 Bhaskar<sup>4</sup>는 타액선의 림프 상피 병변 186예를 대상으로 한 연구에서 양성 림프 상피낭을 타액선내

림프절에 생긴 단발성 혹은 다발성 낭으로 정의하였고 림프절내에 봉입된 타액선 조직이 낭성변화를 일으켜 발생한 것으로 추정하였다. 그 외 다른 학자들은 아가미궁(branchial arch)을 양성 림프 상피낭의 기원으로 여기고 보고하고 있기도 하여<sup>5</sup> 현재 두 가지 가설이 모두 받아들여지고 있다. 임상적으로 이 병변은 재발하거나 전이하지 않는 양성병변이어서 외과적 절제만으로 치유되므로 병리적으로 다른 양성 타액성 종양과 감별진단하는 것이 중요하다<sup>6</sup>. 저자들은 신경섬유종증 환자에서 병발한 양성 림프 상피낭 1예를 경험하여 보고하는 바이다.

접 수 : 1995년 8월 21일, 게재승인 : 1995년 10월 2일  
주 소 : 서울시 종로구 연건동 28번지, 우편번호 110-744  
서울대학교 의과대학 병리학교실, 지제근

증 례: 46세 여자가 10여년 전부터 있었던 좌측 이하선 종괴가 점점 커지는 양상을 보여 내원하였



Fig. 1. Magnetic resonance image reveals a left intra-parotid cystic mass (arrowhead) and bilateral acoustic neuromas (arrow).

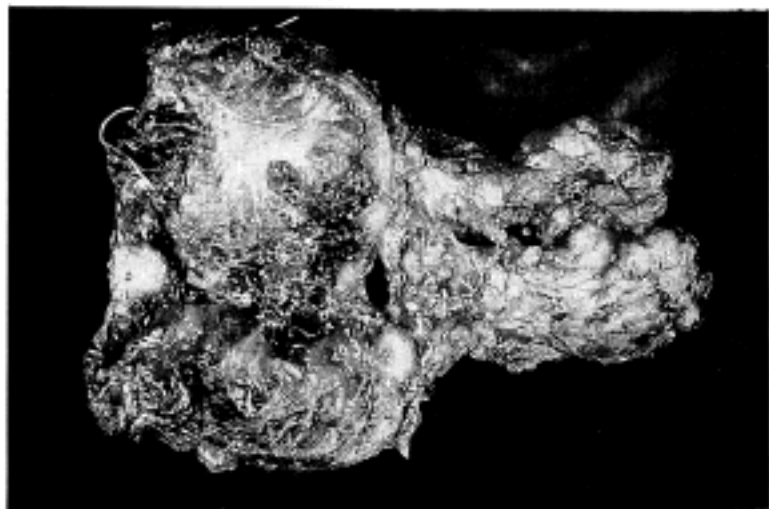


Fig. 2. A well delineated benign lymphoepithelial cyst is seen in the parotid gland.

다. 환자는 신경섬유종증으로 진단을 받은 상태였으며 상지와 양쪽 청신경에 신경섬유종이 있었다. 이하선 종괴는 10여년 전 우연히 만져졌으나 별다른 치료를 받지 않고 지내다가 최근 한의원에서 침을 맞은 이후 점점 커졌다. 진찰소견상 종괴는 4×3 cm 이었으며 자기공명영상으로 이하선내에 위치한 다방성 종괴를 확인할 수 있었다(Fig. 1). 환자가 다발성 신경섬유종증을 가지고 있기 때문에 이하선의 신경원성 종양을 의심하고 좌측 이하선 절제술을 시행하였다. 절제된 이하선의 무게는 12 gm, 크기는 6.5×4×0.8 cm 이었다. 절단면상 주위와 비교적 경계가 분명한 4.5×3 cm의 둥근 종괴가 이하선실질내에 있었고 종괴는 기본적으로 낭성구조물이었으며 주위와의 경계가 뚜렷하고 섬유조직에 의하여

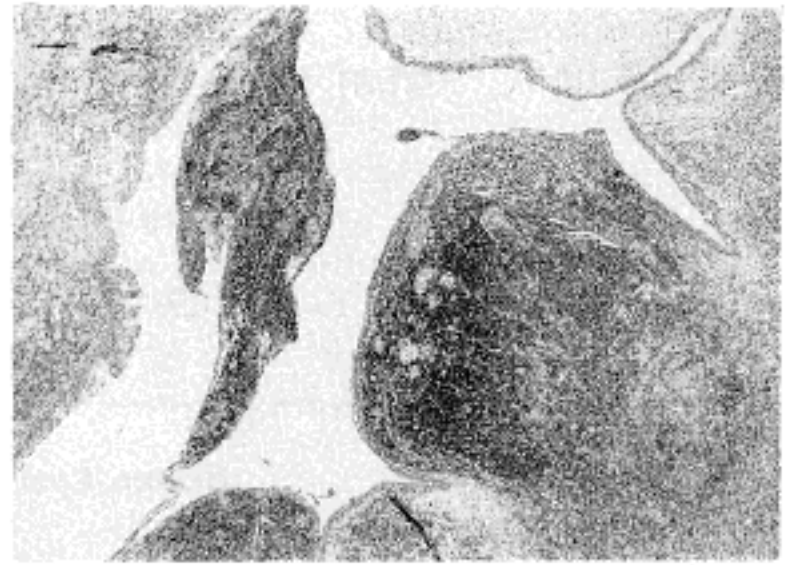


Fig. 3. Histologic features of benign lymphoepithelial cyst. Note squamous epithelial lining and abundant lymphoid tissue within cystic wall.

여러 부분으로 나뉘어져 있었다(Fig. 2). 낭벽은 연노랑색의 과립상 충실성 조직으로 이루어져 있었다. 단면은 매끈하고 연노랑 내지 회백색을 띠었으며 부드러운 정도를 갖고 있었다. 조직학적으로 낭성구조는 중층편평상피, 가성 중층원주상피, 입방상피 등의 다양한 종류의 상피세포로 피복되어 있었다. 중층편평상피로 피복되어 있는 부분이 가장 많았으며 상피세포 아래의 낭벽은 풍부한 림프성 조직으로 이루어져 있었는데(Fig. 3) 여러 군데에서 뚜렷한 배중심(germinal center)을 만들고 있었다. 또한 이하선 실질과는 섬유성 조직으로 구분되어 있었으며 주변 이하선 조직은 정상소견이었고 림프성조직은 없었다.

**고 찰:** 이하선의 낭성 병변은 비교적 드문 질환으로 모든 이하선 종양의 약 5% 를 차지한다<sup>6</sup>. 이는 단순낭, 아가미 틈새낭, 피지 림프선종내 양성 상피낭, 양성 림프 상피낭등을 포함하며<sup>4,7</sup>, 양성 림프 상피낭은 이 중에서도 그 빈도가 낮은 편이어서 이하선 절제조직의 1% 미만으로 보고되어 있다<sup>1,7</sup>. 이들은 선천성, 후천성으로 이하선에서 발생하며, 간혹 주위 조직에서 기원하기도 한다<sup>7</sup>. 양성 림프상피낭의 조직기원에 대하여는 논쟁이 많았으나<sup>2,3</sup> 최근에는 아가미궁 잔유물 기원설<sup>5</sup>과 타액선내 림프절의 상피 봉입체에서 유래한다는 설<sup>4</sup>의 두 가지 가설이 동시에 받아들여지고 있다. 그러나 아가미틈새낭이란 용어는 매우 특이적인 발생학적 기원을 시사하므로 비교적 서술적 용어인 림프 상피낭이 적절하다는 견해가 지배적이다<sup>6</sup>. 이하선내의 림프절에 상

피 봉입체가 존재하는 예는 흔히 보고되었으며<sup>4</sup>, 몇몇 타액선 종양은 림프절에서 이와 같이 매몰된 상피로부터 발생할 수도 있다<sup>7</sup>. 또한 동성연애자나 약물중독 등 후천성 면역결핍증후군 위험군 환자에서 전신성 림프절병증과 더불어 발생한 이하선의 양성 병변도 보고되어 이하선내의 림프절이 전신성 병변에 잘 이환됨을 알 수 있다<sup>6</sup>. 림프 상피낭의 외벽을 채우고 있는 림프성 조직은 피막하 동(subcapsular sinus)과 수질동(medullary sinus)을 갖고 있어서 결절성 구조를 보이며 여포(follicle)를 만들기도 한다. 이 병변은 재발하거나 전이하지 않는 양성병변이어서 외과적 절제만으로 치유되므로 병리적으로 다른 양성 타액선 종양과 감별진단하는 것이 중요하다<sup>6</sup>. 이하선내 양성 림프상피종과 감별하여야 할 질환은 점액표피암종(mucoepidermoid carcinoma), 포상세포암종(acinic cell carcinoma) 등의 악성 종양을 포함하여 와르틴종양, 양성 변화를 보인 양성 림프 상피병변(cystic benign lymphoepithelial lesion)이 있다. 점액표피암종은 양성 림프상피낭이 편평상피세포를 많이 갖는 것에 비해 점액분비세포가 많으며 대낭과 소낭, 점액분비세포와 편평상피세포들이 한데 어울려 만드는 충실성 세포집단(solid nest)이 있는 점이 특징이다. 또한 비교적 양성 변화가 많다 하더라도 낭벽을 둘러싸는 림프성 조직이 없다는 점이 중요한 감별점이다<sup>7</sup>. 포상세포암종의 경우 간혹 심한 양성 변화를 하면서 상피세포로 피복되는 경우가 있는데 이 때에도 내강으로 돌출하는 유두상 돌기와 낭벽의 포상세포결절은 양성 림프 상피낭에서는 관찰되지 않는다. 가장 중요한 것은 피복상피세포가 양성인지 아닌지 여부가 악성종양과 양성 림프 상피낭을 구별하는 기준이 된다. 양성 종양중에서는 와르틴종양에서 편평상피세포로의 화생이 일어난 경우 림프 상피낭과 유사한 모양을 보이기도 하나 대개 화생이 일어난 부위가 부분적이고 대다수의 상피는 두 층으로 이루어진 호산성의 과립상 세포질을 가지므로 감별할 수 있다. 마지막으로 양성 양성 림프 상피병변과의 감별이 있겠는데, 두 질환간의 감별점은 모호한 면이 있지만, 문헌<sup>2,4,6</sup>에 의하면 양성 양

성 림프상피병변은 보다 낭의 크기가 작고 다수이며 림프양 조직의 침윤이 불규칙적이고 상피-근상피섬(epithelial myoepithelial island)이 있는 것이 특징이라고 하였다. 또 이 질환에서 보이는 선구조는 소엽내의 관에서 유래하였으므로 피막으로 싸여 있지 않고 림프 세포의 침윤이 있으나 림프 상피낭에 비해 그 정도가 약하다는 점을 들고 있다.

본 증례는 전신성 질환으로 다발성 신경섬유종증이 있는 환자에서 생긴 타액선의 양성병변이다. 다발성 섬유신경종증과 수반하여 골, 대뇌, 흉선 등 몇가지 장기를 침범하는 양성병변은 기술되어 있으나 타액선의 양성병변에 대한 기술은 찾을 수 없었다. 요약컨대 본 증례는 이하선에서 발생하는 여타의 악성 및 양성 병변과의 감별이 될 수 있고 또 본 병변이 다발성 섬유종증에서 수반될 수 있음도 아울러 기술하였다.

## 참 고 문 헌

1. Bhaskar SN, Bernier JL. Histogenesis of Branchial cysts: a report of 468 cases. *Am J Pathol* 1959; 35: 407-23.
2. Morris MR, Moore DW, Shearer GL. Bilateral multiple benign lymphoepithelial cysts of the parotid gland. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1987; 97: 87-90.
3. Weidner N, Geisinger KR, Sterling RT, Miller TR, Yen TSB. Benign lymphoepithelial cysts of the parotid gland. *Am J Clin Pathol* 1986; 85: 395-401.
4. Bernier JL, Bhaskar SN. Lymphoepithelial lesions of salivary gland. *Cancer* 1958; 11: 1156-79.
5. Work WP. Cysts and congenital lesions of the parotid gland. *Otolaryngol Clin North Am* 1977; 10: 339-42.
6. Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR. Surgical pathology of the salivary glands. Volume 25 in the series, Major Problems in Pathology, Philadelphia: WB Saunders. 1991: 66-69.
7. Smith A, Winkler B, Perzin KH, Wazen J, Blitzer A. Mucoepidermoid Carcinoma arising in the intraparotid lymph node. *Cancer* 1985; 55: 400-403.