

이하선 왈틴씨 종양의 수술방법으로서 종양적출술에 대한 평가

연세대학교 외과대학 외과학교실, ¹병리학교실, ²성균관대학교 의과대학 삼성제일병원 일반외과

권기환 · 서진학 · 허민희² · 정웅윤 · 강혜윤¹ · 박정수

Enucleation for the Management of the Parotid Warthin's Tumor

Ki Hwan Kwon, M.D., Jin Hak Suh, M.D., Min Hee Hur, M.D.², Woong Yun Chung, M.D., Haeyoun Kang, M.D.¹ and Cheong Soo Park, M.D.

Purpose: Warthin's tumor is a slow growing tumor found exclusively either in the parotid gland or the periparotid lymph nodes. Although surgical resection is the treatment of choice, the extent of surgery which is most beneficial has remained controversial. We performed a comparative study of the results between enucleation and parotidectomy groups to evaluate the effectiveness of the enucleation procedure for the surgical management of parotid Warthin's tumor.

Methods: Between January 1981 and July 2001, 74 patients underwent surgical resection of parotid Warthin's tumor. We reviewed the clinicopathological characteristics retrospectively and compared the operation time, postoperative complication rate, duration of postoperative hospital stay and recurrence between the enucleation group and the parotidectomy group.

Results: The mean age was 57.0 years (19~86 years) and the male to female ratio was 5.7 : 1. The majority of the tumors were situated in the lower region of the superficial lobe (89.2%). Bilateral simultaneous involvements of the parotid gland was found in 5 patients (6.8%) and therefore a total of 79 parotid glands were involved. Four (5.4%) of the 79 parotid glands featured multifocal tumors of two or three lumps. Tumor sizes varied from 0.5 to 13.0 cm with a mean diameter of 3.5 cm. Of the 74 patients, 51 (68.9%) were diagnosed preoperatively or perioperatively by means of CT scans, ultrasound, 99m-Tc. scan, fine needle aspiration cytology or intraoperative frozen section biopsy. Of the 79 glands, 46 underwent a superficial (n=39), partial (n=2) or total (n=5) parotidectomy, while enucleation was per-

formed for the remaining 33 cases with single Warthin's tumor. Only one case of recurrence was identified during the follow up period. However the operation time, the postoperative complication rate, and the duration of postoperative hospital stay were all significantly reduced in the enucleation group ($P < 0.05$).

Conclusion: The enucleation procedure may represent a safe and appropriate surgical method for patients with single Warthin's tumor that is diagnosed preoperatively. (*J Korean Surg Soc* 2001;61:474-478)

Key Words: Parotid Warthin's tumor, Enucleation, Parotidectomy

중심 단어: 이하선 왈틴씨 종양, 종양적출술, 이하선 절제술

Departments of Surgery and ¹Pathology, Yonsei University College of Medicine, ²Department of Surgery, Sungkyunkwan University, School of Medicine, Samsung Cheil Hospital, & Women's Healthcare Center, Seoul, Korea

서 론

왈틴씨 종양은 이하선에 발생하는 양성 종양 가운데 두 번째로 많은 빈도를 차지하는 종양으로서 전체 이하선 종양의 4~15%를 차지하고 있다.(1)

1895년 Hildebrand 등(2)에 의하여 처음 보고된 이래로 종양의 발생 원인, 임상적 특성, 육안적, 조직학적인 특성에 대한 보고들이 다수 있었는데, 일반적으로 중년 이후의 남자에서 호발하며, 이하선이나 그 주변부 발생하고 주로 병변이 이하선의 표재엽 하부에 위치하며, 특징적으로 일측 다발성의 빈도가 높으나, 약 10%에서 양측성으로도 나타나는 것으로 알려져 있으며, 일부에서는 악성으로의 변화를 보고한 바 있다.(1-6)

치료는 수술적 절제술이 기본인데, 수술방법 및 범위에 대해서는 많은 논란이 되고 있다. 즉, 수술방법으로서 종양적출술, 부분절제술, 표재엽절제술 및 전절제술 등 다양한데, 종양의 위치, 다발성, 악성변화의 가능성을 고려하여 수술범위를 고려하는 것은 원칙이나 일측엽 단일 종양

책임저자 : 박정수, 서울시 서대문구 신촌동 134
☎ 120-752, 연세대학교 의과대학 외과학교실
Tel: 02-361-5540, Fax: 02-313-8289
E-mail: ysurg@yumc.yonsei.ac.kr

접수일 : 2001년 11월 1일, 게재승인일 : 2001년 11월 5일

에 대한 종양적출술은 아직까지도 그 안정성에 대하여 논란에 대상이 되고 있다.

이에 저자들은 본원에서 수술적 치료를 시행받은 율턴씨 종양 환자를 대상으로 임상병리적 특성을 알아보고 수술방법에 따른 치료결과를 비교분석함으로써 이하선 율턴씨 종양에 대한 수술적 치료방법으로서 종양적출술의 안정성 및 유용도를 알아보려고 하였다.

방 법

1981년부터 2001년 7월까지 본원에서 율턴씨 종양으로 수술적 치료를 시행 받은 74예를 대상으로 이들의 병력 기록, 수술 기록, 병리 기록 및 외래 기록을 후향적으로 조사하여 이 종양의 성별 및 연령, 임상증상, 흡연여부, 양측성 및 다발성, 병소의 위치 및 크기, 진단 시기, 수술방법, 합병증, 재발여부를 조사하였다. 재발이 없는 기간은 수술일로부터 조사의 시점까지로 하였고 재발의 유무는 문진, 이학적 검사 소견 및 영상 진단에 의하여 결정하였다.

또한, 종양적출술의 안정성 및 유용도를 알아보기 위해 양측 수술이 시행되었던 예 및 이하선 전절제술이 시행되었던 예를 제외하고 종양이 표재엽에 존재하였던 대상들에 대한 수술방법에 따른 성별 및 연령, 다발성, 병소의 위치 및 크기, 수술시간, 합병증 빈도, 수술 후 재원기간, 재발률을 비교하였다.

결 과

1) 임상병리적 특성

총 74예 중 남자가 63예, 여자가 11예로 남녀비는 5.7 : 1이었으며, 평균 연령은 57.0세(19~86세)이었는데, 연령별로는 10대가 1예(1.35%), 30대가 3예(4.05%), 40대가 14예(18.9%), 50대가 22예(29.8%), 60대가 23예(31.08%), 70대가 10예(13.5%), 80대가 1예(1.35%)의 분포를 보여 40대에서 60대의 중년층에서의 발생빈도가 높았다.

내원시 임상증상으로는 무증상의 이하부 종괴 촉지가 71예로 대부분을 차지하였으며, 나머지 3예는 경부의 다른 증상으로 검사 중 우연히 발견된 경우이었다.

흡연력은 20예에서 조사가 불가능하였으며, 흡연력 조사가 가능하였던 54예 중 49예(90.7%)가 흡연력의 과거력이 있었는데 이 중 남자가 44예 여자가 5예이었다.

전체 74예 중 종양이 일측 이하선에서만 존재하였던 경우가 69예이었고, 양측 이하선에서 종양이 발견된 경우가 5예로서 6.8%의 양측성을 보였다. 일측 이하선에 다발성으로 발생한 경우는 4예(5.4%)로서 2개가 3예, 3개가 1예로서 진단된 종양의 전체 개수는 84개였다. 84개의 종양 중 이하선 심엽(deep lobe)에 위치한 경우가 3예(3.6%)였고 표재엽에 위치한 경우는 81예이었는데, 표재엽 내의

상부에서 발견된 경우가 1예(1.2%), 중부에서 발견된 경우가 5예(6.0%), 하부에서 발견된 경우가 75예(89.2%)로 주로 표재엽의 하부에서 위치하고 있었다. 종양의 크기는 0.3 cm에서 11.0 cm까지 다양하였고 평균 크기는 3.5 cm이었다.

수술 전 진단 수기로는 초음파(n=24), 컴퓨터 전산화 단층촬영(n=45), 99m Tc. Scan (n=16), 자기공명영상촬영(n=1), 세침흡인술(n=23) 등을 단독 혹은 병행하여 실시하였고, 수술 중 동결절편검사는 25예에서 실시하였는데, 수술 전 이학적 소견과 진단시기, 수술 소견, 동결절편검사로서 수술 전 및 수술 중 진단된 경우는 51예로 68.9%이었다.

시행된 수술방법은 79개의 이하선 수술 중 표재엽절제술 39예, 전엽절제술 5예, 부분 절제술 2예, 종양적출술 33예이었다.

수술 후 합병증은 17예(22.9%)에서 발생하였는데 일시적인 안면신경마비가 9예, Frey 증후군이 3예, 타액루가 1예, 안면신경진탕(neuropraxia)이 2예, 수술 후 출혈이 1예, 창상감염이 1예로 영구적 안면신경마비와 같은 심각한 합병증은 없었다.

추적기간 중 재발된 예는 한 예로 1차 수술이 시행된 우측과 수술하지 않은 좌측 이하선 부위에 각각 단일종이 한개씩 양측으로 발생하여 2차 수술을 시행하였다. 추적 관찰기간은 3개월에서 247개월로 평균 104.1개월이었다.

2) 수술방법에 따른 결과

74예 중 양측 수술이 시행되었던 예(n=5) 및 이하선 전절제술이 시행되었던 예(n=5)를 제외한 64예 중 종양적출술이 시행되었던 33예와 표재엽절제술(n=39) 혹은 부분절제술(n=2)이 시행되었던 41예에 대한 두 군간의 성별 및 연령, 다발성, 병소의 위치 및 크기에는 차이가 없었다(Table 1). 그러나 두 군간의 수술시간, 합병증 빈도, 수술

Table 1. Demographic characteristics of patients undergoing enucleation or parotidectomy

Variable	Enucleation (n=33)	Parotidectomy* (n=41)	p-value
Age (years) [†]	56.4 ± 6.7	58.3 ± 7.2	NS [†]
Male to female ratio	7.3 : 1	5.8 : 1	NS [†]
Location of tumor			NS [†]
Upper portion	0	1	
Mid portion	1	4	
Lower portion	32	36	
Tumor size (cm)	3.4 ± 1.1	3.6 ± 1.3	NS [†]
Multiplicity	1 (3.0%)	2 (4.9%)	NS [†]

* = superficial parotidectomy and partial parotidectomy; [†] = Mean ± SEM; [†] = not significant.

Table 2. Comparison of perioperative outcome parameters and recurrence for enucleation versus parotidectomy

Variable	Enucleation (n=33)	Parotidectomy* (n=41)	p value
Operative time [†] (min)	54.3±10.8	125.4±21.7	<.05
Hospital stay [†] (days)	1.7±0.5	4.4±1.3	<.05
Postoperative complications	2 (6.1%)	12 (19.3%)	<.05
Transient facial nerve palsy	1	6	
Frey's syndrome	—	3	
Salivary fistula	—	1	
Neuropraxia	1	1	
Infection	—	1	
Recurrence	1 (3.0%)	—	NS [‡]

* = superficial parotidectomy and partial parotidectomy; [†] = Mean ± SEM; [‡] = not significant.

후 재원기간, 재발률의 비교(Table 2)에서는 종양적출술군의 수술시간, 수술 후 재원기간 및 합병증 빈도가 이하선 절제술군에 비해 유의한 차이를 보였다(P<0.05). 재발은 종양적출술군에서 1예만이 있었다.

고 찰

왈틴씨 종양은 papillary cystadenoma lymphomatosum이라고도 알려져 있는데, 이 명명은 종양의 특징적인 조직학적인 모양에 근거를 둔 것으로 papillary cystadenoma는 종양이 낭성 구조를 이루며 두층의 상피가 낭종내로 유두상 돌기를 갖는다는 것에 대한 설명이고, lymphomatosum은 왈틴씨 종양에서 특징적인 종양을 지지하는 주변의 림프 조직에 대한 설명으로 종양의 명칭이 그 조직학적 특성을 잘 표현해 주고 있다.(1,2,4)

왈틴씨 종양은 이하선의 양성 종양 중에서 양성 혼합종에 이어서 빈도상 두 번째를 차지하고 있는 종양으로서 보고자에 따라 차이가 있으나 대개 4.7~14.4% 정도로 보고되고 있고,(1) 많게는 30%까지 보고하는 이들도 있다.(7) 이 종양은 특징적으로 남자에서 호발하여 5~7:1 정도로 남자에서 그 빈도가 높은 것으로 되어있으나,(8) 최근의 보고에서는 1~1.6:1로 여자에서의 빈도가 점차 증가하여 남녀 성비의 차이가 점차 줄어드는 추세에 있다고 한다.(7,9) 왈틴씨 종양이 여자에서 빈도가 증가하는 원인 중 하나로 흡연을 들고 있는데, 남녀에 관계없이 90% 내외에서 흡연력이 있는 것으로 보고되고 있고,(7,9,10) Kotwall(11)은 흡연을 하는 군에서 종양의 발병 위험성이 8배 정도 높다고 보고하기도 하였다. 또한, 흡연과 관련된



Fig. 1. A CT scan showing a right side parotid mass with internal cystic change.

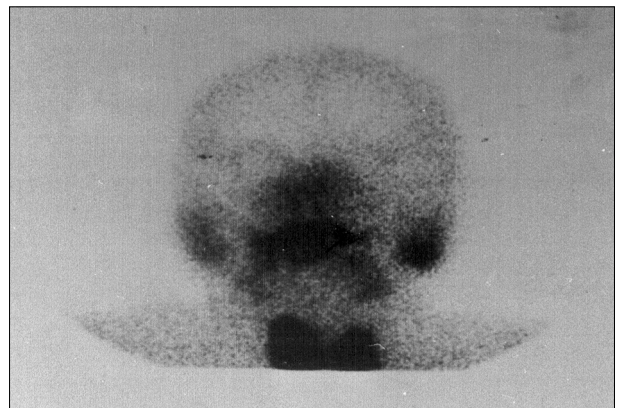


Fig. 2. A 99m-Tc. scan showing a relatively higher uptake in left parotid gland.

질환의 증가 비율이 왈틴씨 종양의 증가 비율과 비슷한 점 등을 들어 흡연과의 연관성이 강하게 제기되고 있다. 이 종양은 이하선 부위에서 서서히 성장하는 종괴 외에 특징적인 임상증상은 없으며, 이학적 소견상 부드럽고 유동성인 종괴가 이하선 하부에서 만져지는 경우가 많다. 초음파 혹은 컴퓨터 단층 촬영(Fig. 1)을 통하여 종양의 위치 및 크기 등을 알 수 있고, 환자의 70% 정도는 99m-Tc. Scan (Fig. 2)에서 hot uptake를 보이며 61~83%에서는 세침흡인 세포검사에 의하여 진단이 가능하다고 하였다.(5)

본 연구에서도 남녀비는 5.7:1로 남자에서 월등히 빈도가 높았으며, 평균 연령도 57.0세로 40대에서 60대의 중년층에서의 발생빈도가 높았다. 또한 흡연력 조사가 가능

하였던 54예 중 49예(90.7%)가 흡연력의 과거력이 있어 흡연과 율턴씨 종양의 발생과의 연관성을 추측할 수 있었다. 대상환자들은 주로 내원시 무증상의 이하부 종괴가 촉진됨을 주소로 내원하였고, 수술 전 특징적인 이학적 소견과 진단수기, 수술 소견, 동결절편검사로서 68.9%의 환자에서 수술 전 혹은 수술 중 율턴씨 종양이라고 진단할 수 있었다.

율턴씨 종양은 주로 이하선의 표재엽의 하부에서 발생되는데, 8% 정도에서는 이하선 외부에서 발생되고 드물게는 이하선 주변 림프절에서도 발견되기도 한다.(6,9) 육안적 소견은 잘 발달된 피막으로 둘러싸여 있는 회색-갈색의 종괴로 가끔은 엽상을 보이고 대개 낭성 구조물을 이루고 있으며(Fig. 3), 혼합종(pleomorphic adenoma)과는 달리 피막과열로 인한 pseudopod는 없다. 크기는 다양하게 관찰되나 평균 3~4 cm 정도로 보고되어 있다.(9,12) 율턴씨 종양의 또 다른 특징은 다발성과 양측성에 있다. 여러 보고에 의하면 10% 이상에서, 많게는 30%까지의 다발성과 5~9%의 양측성이 보고되고 있고 occult tumor도 6% 정도에서 발견된다고 한다.(5,9) 또한, 악성화의 가능성은 거의 없으나 1965년에 율턴씨 종양에서의 편평 상피암이 보고된 이래로(13) 약 0.3% 빈도로 악성화를 보일 수 있는 것으로 되어 있다.(1)

본 연구에서는 양측성은 6.8%, 일측 다발성은 5.4%이었으며, 종양이 표재엽 하부에서 위치하고 있는 경우가 89.2%이었다. 종양의 평균 크기는 3.5 cm이었으며 악성인 경우는 없었다.

율턴씨 종양의 치료가 수술적인 제거라는 점에는 이견의 여지가 없으나 수술의 범위에 대하여 많은 논란이 있다. Zappia 등(14)은 이 종양이 악성화의 가능성은 적으나 특징적으로 양측성과 다발성을 갖기 때문에 단순종양적출술로는 많은 재발의 여지가 있어 최소 수술은 표재엽절제술이 되어야 한다고 하였다. 더 나아가 Gant 등(15)은

표재엽 절제술 후에도 25%의 재발률을 보고하여 이하선 전절제술을 시행해야 한다고 주장하였다. 즉, 종양적출술만을 시행 시 간과될 수 있는 다발성 병소의 빈도가 높고 적은 빈도이지만 악성으로의 변화 가능성이 있기 때문에 좀 더 광범위한 수술을 시행해야 한다는 주장이다.

그러나 Heller 등(8)은 표재엽절제술 후의 재발률도 10% 이상 되어 종양적출술과 비교하여 재발률의 차이가 없다고 하였으며, 다른 보고(10)에서도 수술 방법에 따른 재발률의 차이는 없는 것으로 되어있다. 또한 수술 전 여러 가지 진단방법의 발달로 수술 전 다발성 혹은 양측성 병소를 정확히 진단할 수 있게 되어 다발성 병소를 간과할 수 있는 가능성은 더욱 적어졌고, 악성 종양으로의 변화 빈도는 매우 낮으므로 모든 예에서 이하선 전엽절제술을 시행하기보다는 일측 단일종양인 경우, 특히 빈도가 높은 이하선 표재엽 하부에 위치하는 경우는 종양적출술만으로도 충분하다고 할 수 있다.

본 연구에서는 총 74예 중 단지 1예에서만 재발이 있었다. 이처럼 다른 보고에 비하여 재발률이 낮은 이유는 첫째, 수술 전 모든 환자에서 초음파 검사 혹은 컴퓨터 단층촬영 등을 실시하여 수술 전에 다발성에 대한 충분한 사전 조사가 있었으며, 둘째, 종양적출술 중 있을 수 있는 tumor spillage를 막기 위해 종양의 이하선 연접부위의 정상 조직을 일부 포함하여 안정성을 높였기 때문으로 생각된다. 특히 재발이 있었던 1예도 후향적으로 조사한 결과 1차 수술 전 시행했던 컴퓨터단층촬영에서 수술적 절제가 시행되었던 병소 이외에 재발병소로 생각되는 작은 병소가 한 개씩(0.5 cm, 1.0 cm) 좌 우 이하선에 존재함을 알 수 있었는데, 이는 일차 수술시 간과되었을 것으로 생각되며, 수술 전 시행된 컴퓨터단층촬영을 면밀히 관찰하였다면 재발을 방지할 수 있지 않았나 생각된다.

수술 후 합병증은 단순종양적출술에 비하여 수술의 범위가 확대된 이하선절제술인 경우에 그 빈도가 높음이 보

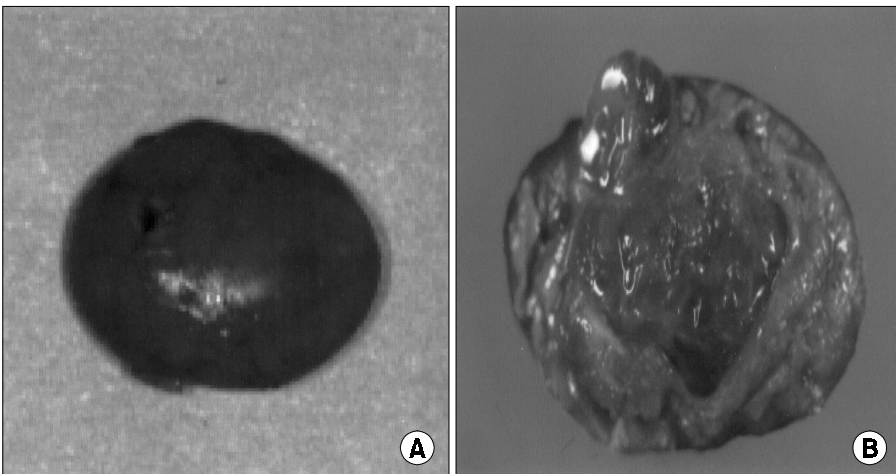


Fig. 3. Photographies (A and B) showing a 4.0 cm sized cystic mass resected by enucleation.

고되고 있는데, Woods 등(16)에 의하면 표재엽절제술 이상의 범위를 수술하는 경우에 20% 이상에서 Frey 증후군이 관찰된다고 하였으며, Ebbs와 Webb(5)는 표재엽절제술 이상의 수술을 하는 경우는 43%에서 안면신경진탕이 있었고 반면 단순종양절제술에서는 단지 8%에서 안면신경진탕이 있었다고 하였다.

본 연구에서도 부분절제술 혹은 표재엽절제술이 시행된 41예 중 12예(29.3%)에서 합병증이 발생되었는데, 종양적출술이 시행된 33예 중에서는 단지 2예(6.1%)에서 발생하였고, 수술시간, 재원기간도 종양적출술군이 이하선절제군에 비해 현저하게 적어 종양적출술의 유용성을 확인할 수 있었다.

결 론

대부분의 왈턴씨 종양은 수술 전, 혹은 수술 중에 임상적 특징, 영상 조영술, 세침흡입술, 수술 소견이나 이들의 조합에 의하여 진단이 가능한 경우가 많고 특히 다발성, 양측성 병소에 대한 진단율이 높아짐에 따라 모든 환자에게 일률적인 이하선 절제술을 시행하기보다는 종양의 위치, 크기, 양측성, 다발성을 고려하여 수술범위를 신중히 결정하여야 할 것으로 생각되며, 만약 이하선 내에 단일 종양만이 있는 경우에는 종양적출술만을 시행해도 무방하리라고 사료된다.

REFERENCES

- 1) Batsakis JG. Pathology consultation; Carcinoma ex papillary cystadenoma lymphomatosum; malignant Warthin's tumor. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1987;96:234-5.
- 2) Hildebrand O. Uber angeborene epitheliale cyten und fisteln des Hales. *Arch Fklin Cbir* 1895;49:167.

- 3) Albrecht H, Artz L. Beitrage zur Frage der gewebverirrung papillare cystadenoma in Lymphdrusen. *Z Pathol* 1910;4:47-69.
- 4) Warthin AD. Papillary cystadenoma lymphomatosum. *J Cancer Res* 1929;13:116-25.
- 5) Ebbs SR, Webb AJ. Adenolymphoma of the parotid; aetiology, diagnosis and treatment. *Br J Surg* 1986;73:627-30.
- 6) Snyderman C, Johnson JT, Barnes EL. Extraparotid Warthin's tumor. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1986;94:169-75.
- 7) Monk JS Jr, Church JS. Warthin's tumor; A high incidence and no sex predominance in central pennsylvania. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1992;118:477-8.
- 8) Heller KS, Attie JN. Treatment of Warthin's tumor by enucleation. *Am J Surg* 1988;156:294-6.
- 9) Lamelas J, Terry JH Jr, Alfonso AE. Multicentricity and increasing incidence in women. *Am J Surg* 1987;154:347-51.
- 10) Yoo GH, Eisele DW, Askin FB, Driben JS, Johns ME. Warthin's tumor; A 40-year experience at the Johns Hopkins Hospital. *Laryngoscope* 1994;104:799-803.
- 11) Kotwall CA. Smoking as an etiologic factor in the development of Warthin's tumor of the parotid gland. *Am J Surg* 1992;164:646-7.
- 12) Chaudhry AP, Gorlin RJ. Papillary cystadenoma lymphomatosum (Adenolymphoma); A review of the literature. *Am J Surg* 1958;95:923-31.
- 13) Pava SDL, Knutson GH, Mukhar F, Pickren JW. Wquamous cell carcinoma arising in Warthin's tumor of the parotid gland. *Cancer* 1965;18:790-4.
- 14) Zappia JJ, Sullivan MJ, McClatchey KD. Unilateral multicentric Warthin's tumor. *J Otolaryngol* 1991;20:93-6.
- 15) Gant TD, Hovey LM, Williams C. Surgical management of parotid gland tumors. *Ann Plast Surg* 1981;6:389-92.
- 16) Woods JE, Chong GC, Behrs OH. Experience with 1360 primary parotid tumors. *Am J Surg* 1975;130:460-2.