

CASE REPORT

## 간급이대장에 발생한 이소성 타액선 조직: 증례보고 1예

이준호, 김선영<sup>1</sup>, 김세진<sup>2</sup>

동강병원 내과, 병리과<sup>1</sup>, 건진센터<sup>2</sup>

### Heterotopic Salivary Gland Tissue at the Hepatic Flexure of the Large Intestine: A Case Report

Jun Ho Lee, Sunyoung Kim<sup>1</sup> and Se Jin Kim<sup>2</sup>

Departments of Internal Medicine, Pathology<sup>1</sup> and Health Promotion Center<sup>2</sup>, Dongkang Medical Center, Ulsan, Korea

The occurrence of heterotopic tissue in the large intestine is unusual. The most common heterotopic tissue type described is gastric-type mucosa. On the other hand, heterotopic salivary gland tissue in the large intestine is extremely rare. To the best of the authors' knowledge, only five cases of heterotopic salivary gland in the large intestine have been reported, and all cases arose in the left colon. One out of five cases arose in the sigmoid colon, and the four other cases were found in the rectum-anal canal region. Endoscopically, they usually appeared as a polyp. The presentation of the patients was rectal bleeding or asymptomatic. Heterotopic salivary gland tissue in the colon has not been reported in Korea. This paper reports a case of heterotopic salivary gland tissue at the hepatic flexure of the colon and reviews the literature on similar cases. A 55-year-old male underwent large bowel endoscopy for colorectal carcinoma screening. The colonoscopy revealed five polyps. A sessile polyp at the hepatic flexure, 0.6 cm in size, was resected in a piecemeal manner. The histopathologic findings revealed a salivary gland with mixed mucinous-serous features and ducts. The other four polyps all were diagnosed as tubular adenoma with low-grade dysplasia. (*Korean J Gastroenterol* 2018;72:213-216)

**Key Words:** Heterotopic tissue; Salivary gland; Colon; Hepatic flexure

## 서론

이소성 조직은 형태학적으로 정상이면서 그것이 유래한 장기와 분리되어 다른 해부학적 장기에 위치하는 것을 의미한다. 대장에서 이소성 조직은 비교적 드물게 발견되며 가장 흔한 것은 이소성 위점막 조직으로 보고되어 있고,<sup>1</sup> Iacopini 등<sup>2</sup>은 항문과 직장에 발생한 이소성 위점막의 72예에 관한 문헌고찰을 기술하였다. 이외 아주 드물게 대장에서 췌장, 식도 등의 이소성 조직이 보고되었다.<sup>3,4</sup> 타액선은 정상적으로 주타액선과 구강, 비인두 및 상부기도에 산재된 소타액선이 있으며, 대장에서 이소성 타액선 조직이 발견된 예는 아주 희귀하

여 1972년 Shindo 등<sup>5</sup>이 항문관에서 처음으로 보고한 이후로 전 세계적으로 5예가 보고되어 있으며,<sup>1,6-8</sup> 국내문헌에서는 보고된 예를 발견할 수가 없었다. 발생 부위는 직장-항문관 부분이 4예로 가장 흔하였고 1예만이 구불결장에서 발생하였으며,<sup>9</sup> 우측결장에서 발생한 예의 보고는 없다. 증상은 항문출혈 혹은 우연한 발견(incidental finding)으로 되어있다. 조직 소견은 대개 점막하 조직에서 점액성-장액성세포의 혼합형태로 구성된 타액선 조직을 보이며 2예에서는 이소성 위점막과 동반된 것으로 보고되어 있다.<sup>1,5</sup> 발생 기원은 배아잔유물의 비정상적 분화에 의한 것이라는 설과 화생성 변화에 의한 것이라는 설 등이 있다.<sup>1-8</sup> 저자들은 아주 드문 증례인 대장의 간급

Received July 30, 2018. Revised September 19, 2018. Accepted September 29, 2018.

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Copyright © 2018. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 김선영, 44455, 울산시 중구 태화로 239, 동강병원 병리과

Correspondence to: Sunyoung Kim, Department of Pathology, Dongkang Medical Center, 239 Taehwa-ro, Jung-gu, Ulsan 44455, Korea. Tel: +82-52-241-1365, Fax: +82-52-241-1366, E-mail: a01028@naver.com, ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-9479-0549>

Financial support: This paper was supported by the 2018 Dongkang Medical Center grant.

Conflict of interest: None.

이에서 발생한 이소성 타액선 조직을 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

## 증 례

기저 질환이 없는 55세 남자 환자로 건강검진을 위하여 본원에서 하부대장 내시경을 시행하였다. 내원 당시 활력징후는 안정적이었으며 신체 검사 상에서 특이 소견은 발견되지 않았다. 흉부, 복부 X-ray 검사 상에서 특이 소견은 없었으며 건강검진에서 시행한 복부 초음파에서 경도의 지방간 이외에는 특이 소견 확인되지 않았으며, 복부 컴퓨터단층촬영에서 역시 경도의 지방간이 확인되었다. 혈액 검사 결과 혈색소 15.9 g/dL (13.0-17.0 g/dL), 혈소판 157,000/mm<sup>3</sup> (150-400×10<sup>3</sup>/mm<sup>3</sup>), 백혈구 5,800/mm<sup>3</sup> (4.0-10.0×10<sup>3</sup>/mm<sup>3</sup>), 혈당 197 mg/dL

(70-120 mg/dL), triglyceride 580 mg/dL (30-160 mg/dL), BUN 10.9 mg/dL (8.0-20.0 mg/dL), creatinine 0.8 mg/dL (0.4-1.3 mg/dL), AST 36 IU/L (0-35 U/L), ALT 43 IU/L (0-40 U/L), 당화혈색소 9.7% (4.1-5.9%)로 확인되어 향후 내분비내과 진료를 권유하였다. 수면 하부대장 내시경 검사에서 총 5개의 생검을 시행하였으며 2번 생검은 간갑이에서 0.6 cm 크기의 목없는 폴립(Fig. 1)을 보였고 여러 조각들로 제거되었다. 1번과 3-5번 검체는 각각 상행결장, 간갑이, 횡행결장과 구불결장의 폴립에서 채취하였으며 0.1-0.3 cm의 크기를 보였다. 병리과에서 받은 검체는 5개의 검체였고, 1번과 3-5번은 앞에 기술되었으며, 조직 검사상 2번 검체는 4개의 조각으로 0.1-0.4 cm 크기의 갈색을 띠는 조직으로 구성되었으며, 조각들로 절제되었고 결장과 타액 조직이 분리되어 위치와 관련된 상관관계는 파악할 수가 없었다(Fig. 2). 현미경 소견에서 섬유성

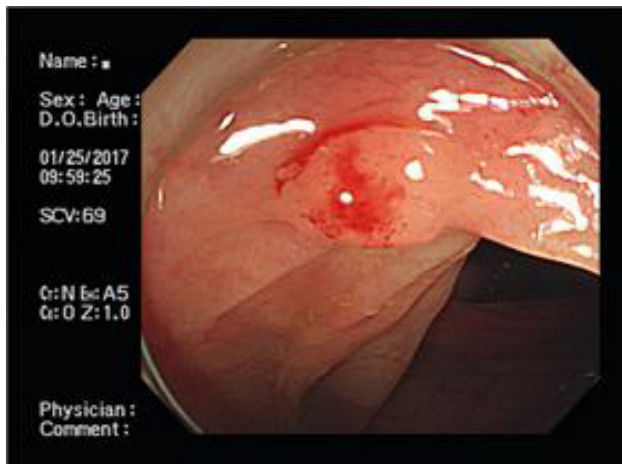


Fig. 1. Colonoscopic view of biopsy #2.



Fig. 2. Photomicrograph shows multiple pieces of salivary gland tissue and a separated piece of colonic mucosa (arrow) (H&E, ×1).

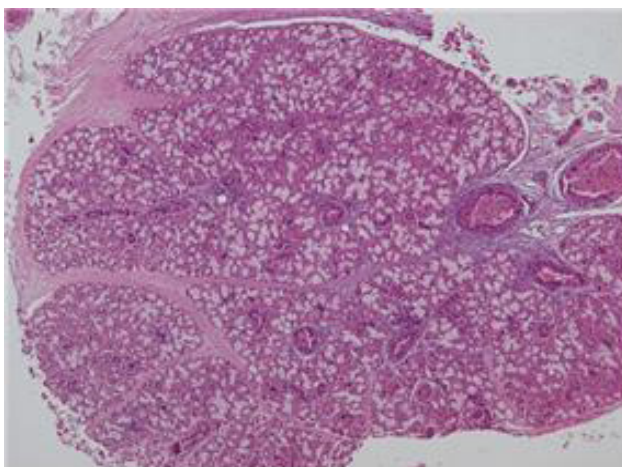


Fig. 3. Photomicrograph shows a salivary gland with lobular architecture composed of mixed acini, secretory ducts and interlobular duct in the septal connective tissue (H&E, ×40).

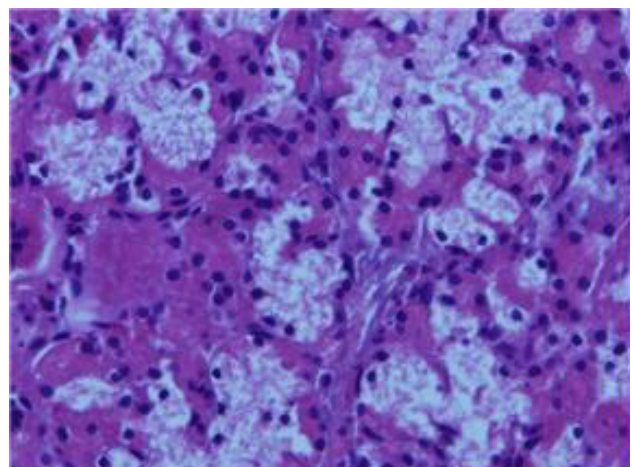


Fig. 4. Photomicrograph shows mixed acini composed of pale-staining mucous cells and dense serous cells forming demilunes (H&E, ×400).

중격에 의하여 나뉘어진 소엽(lobule)과 소엽내관(intralobular duct), 소엽사이관(interlobular duct)이 관찰되었으며(Fig. 3), 소엽은 혼합성 선방(mixed acini)으로 이루어졌고, 선방을 구성하는 세포는 창백하게 염색되는 점액성 세포들과 선방의 주변부에서 반월형을 형성하는 진한 장액성 세포들로 구성되어(Fig. 4) 이소성 타액선에 일치하는 것으로 진단되었다. Alcian-blue 염색에서 점액성 세포는 산성점액(acid mucin)에 양성이었으나 장액성 세포는 반응하지 않았다(Fig. 5). 나머지 1번과 3-5번 검체 모두 저등급 이형성을 보이는 관샘종으로 진단되었다. 환자는 복통 등의 특이 증상을 보이지 않았으며 1년 뒤 경과 관찰을 위하여 하부대장 내시경을 받기로 하였다.

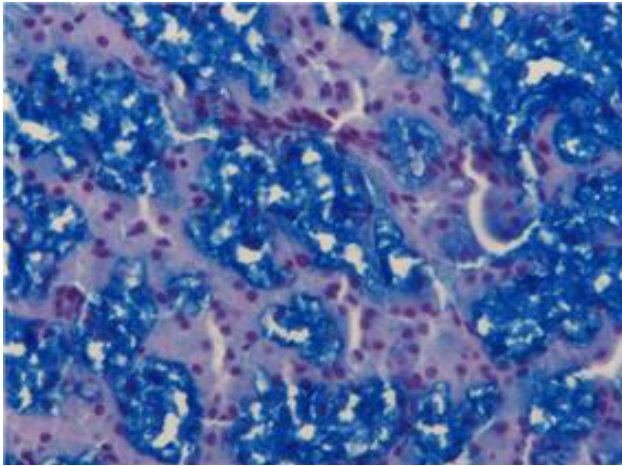


Fig. 5. Acini shows mucous cells containing acid sialomucin (Alcian blue stain,  $\times 400$ ).

## 고 찰

이소성 타액선 조직은 형태학적으로 정상이면서 타액선이 유래한 장기와 분리되어 다른 해부학적 장기에 위치하는 것을 의미한다. 이소성타액선 조직은 림프절내타입(intranodal type)과 림프절외타입(extranodal type)으로 나뉘어지며, 림프절내타입이 더 흔하다.<sup>9</sup> 유아는 귀밑샘내 혹은 귀밑샘 가까이 있는 거의 모든 림프절에서 타액선이 발견되며, 성인은 만연하지는 않으나 여전히 매우 흔하다. 림프절외타입은 드물며 머리, 목, 가슴, 복부 등에서 발생하는 것으로 되어 있으며, 머리와 목에서는 위치에 따라서 상부와 하부 이소증으로 분류한다. 상부 이소증은 하악골, 귀, 목구멍 편도, 하악설골근, 뇌하수체, 소뇌교각 부위를 포함하며, 하부 이소증은 경부하부에 있는 낭(cyst)이나 굴(sinus)과 연관되거나 갑상샘에서 발견되며, 우측 흉골유돌근육(sternomastoid muscle)의 내측 경계를 따라 가장 흔히 발견된다.<sup>9-11</sup>

대장에 발생한 이소성 타액선 조직은 아주 희귀하며, 1970년 Wolff<sup>1</sup>는 직장에서 발생한 이소성 위상피 3예를 보고하면서 이 중 1예에서 이소성 타액선 조직이 함께 동반된 것을 기술하였고, 1972년 Shindo 등<sup>5</sup>이 항문관에서 이소성 타액선 조직을 처음으로 보고한 이후로 모두 5예가 보고되었다.<sup>6-8</sup> 발생 부위는 직장-항문관 부분이 4예로 가장 흔하였고 구불창장에서 발생한 1예가 있었으며, 이외 대장은 아니지만 항문 주위에 생긴 1예의 보고가 있다.<sup>12</sup> 모두 좌측 대장에서 발생하였으며 우측 대장에서는 보고된 예가 없으며, 본 증례에서는 관샘종이 동반되었으나 다른 증례들은 이에 관하여 기술되어 있지 않았다. Downs-Kelly 등<sup>7</sup>에 의하여 문헌보고된 증례들에 본 증례를 추가하여 요약한 임상병리학적 소견(Table 1)에서, 나이는 24-61세로 평균 나이는 45세이며, 남녀비는 4:2로 남자

Table 1. Summary of the Clinicopathologic Features of Patients with Heterotopic Salivary Gland Tissue in the Large Intestine

Case	Age	Gender	Presentation	Endoscopic finding and location	Heterotopic tissue	
					Salivary gland	Gastric mucosa
Shindo et al. (1972) <sup>5</sup>	24	M	Rectal bleeding	Hemorrhoid with adjacent diverticulum 3 cm above AV	+	+
Wolff (1972) <sup>1</sup>	46	F	Incidental finding	1.5 cm rectal polyp, pedunculated, 13 cm above AV	+	+
Weitzner (1983) <sup>6</sup>	61	M	Incidental finding	1 cm rectal polyp, 10 cm above AV	+	-
Downs-Kelly et al. (2003) <sup>7</sup>	31	M	Rectal bleeding	2 cm rectal polyp on digital rectal examination	+	-
Maffini et al. (2012) <sup>8</sup>	55	F	Incidental finding	1 cm sigmoid polyp, pedunculated, 19 cm above AV	+	-
Current	55	M	Incidental finding	0.6 cm sessile polyp hepatic flexure	+	-

M, male; AV, anal verge; F, female.

가 조금 더 많았다.<sup>1,5-8</sup> 병변의 위치는 항문피부선에서 13-19 cm 사이 3예와 간갑이 1예, 수지항문 검사내 위치 2예이며, 증상은 우연 발견 4예와 항문출혈 2예가 있었는데, 이는 수지항문 검사내 위치한 증례에 해당되어서 증상의 발생은 병변의 위치와 관계있는 것으로 보인다. 이소성 타액선의 기능에 관하여 머리와 목에서 발생하는 하부 이소증은 타액을 분비할 수 있는 것으로 알려져 있으나,<sup>9</sup> 대장에서 발견된 예들의 기능에 관해서는 보고되어 있지 않다. 육안 소견에서 모두 폴립모양을 하였고 이 중 목있는 타입(pedunculated type)은 2예가 있었으며, 이종성 증식을 통한 이소성 조직괴를 형성한 증례들은 모두 이소종(christoma)에 해당하는 것으로 볼 수 있다.<sup>8</sup> 조직 소견은 모두 점막하 조직에 위치하였으며 1예는 점막 조직 내에서 개재관을 관찰할 수 있었다고 하였으나, 본 증례는 단편적으로 절제되어 왔으며 대장 조직과 분리되어 있어서 위치를 파악하기는 어려웠다. 형태학적으로 점액성-장액성 세포의 혼합형태로 구성된 타액선 조직을 나타내어 턱밑샘과 소타액선의 형태와 유사한 것으로 되어 있으며 본 증례에서도 동일하였고, 2예에서는 이소성 위조직과 동반된 것으로 보고되어 있다.<sup>1,5</sup> 이소성 타액선 조직은 정상 타액선과 마찬가지로 낭형성, 호산성 과립세포성 화생(oncocytic metaplasia), 관중식, 양성 혹은 악성 종양이 생길 수 있으며, 종양은 Warthin 종양이 가장 흔한 것으로 알려져 있다.<sup>9</sup> 치료는 완전 절제로 되어있다.<sup>7</sup>

발생 기전에 있어서는 배아잔유물의 비정상적 분화에 의한 것이라는 설과 화생성 변화에 의한 것이라는 설 등 여러 가지 설이 있다.<sup>1-8</sup> Wolff<sup>1</sup>는 이소성 위상피를 선천성과 후천성으로 분류하면서 선천성 이소증은 한 가지 이상의 조직이 있거나 이소증이 완전한 전층 위바닥 점막을 가지며, 발생 기전은 이소증 발생 위치에 따라 발생 중 하강의 실패로 인한 위치결정의 오류와 해당 위치의 태아의 내배엽에서의 발생 오류를 제시하였으며, 후천성 이소증은 이소성 세포가 산재되어서 나타나거나 조직의 일부 구성 세포로 이루어지며, 결핵, 국한성희장염, 궤양 등에 의하여 기존에 존재하는 점막의 파괴에 따른 증식성 재생 세포가 비정상적인 분화를 일으킨 것과 관련 있는 것으로 주장하였다. Nicholson<sup>13</sup>도 선천성 이소성 조직은 화생성 조직보다는 구조상으로 좀 더 완전하고 복잡한 모습을 보인다고 하였다. 본 증례에서는 타액선의 완전한 구조를 보

이며, 염증 소견이나 주변에 화생성 변화를 일으킬 수 있는 항문주위샘과 같은 구조물도 없어서 선천적인 발생에 기인하는 것으로 보이지만, 발생 기전에 관해서는 더욱 많은 연구가 필요할 것으로 보인다. 저자들은 건강검진을 위하여 시행한 하부대장 내시경에서 아주 드문 증례인 간갑이대장의 이소성 타액선 조직을 경험하였기에 이를 보고하는 바이다.

## REFERENCES

1. Wolff M. Heterotopic gastric epithelium in the rectum: a report of three new cases with a review of 87 cases of gastric heterotopia in the alimentary canal. *Am J Clin Pathol* 1971;55:604-616.
2. Iacopini F, Gotoda T, Elisei W, et al. Heterotopic gastric mucosa in the anus and rectum: first case report of endoscopic submucosal dissection and systematic review. *Gastroenterol Rep (Oxf)* 2016;4:196-205.
3. Abraham J, Agrawal V, Behari A. Mucinous cystic neoplasm in heterotopic pancreas presenting as colonic polyp. *JOP* 2013;14:671-673.
4. Aterman K, Abaci F. Heterotopic gastric and esophageal tissue in the colon. *Am J Dis Child* 1967;113:552-559.
5. Shindo K, Bacon HE, Holmes EJ. Ectopic gastric mucosa and glandular tissue of a salivary type in the anal canal concomitant with a diverticulum in hemorrhoidal tissue: report of a case. *Dis Colon Rectum* 1972;15:57-62.
6. Weitzner S. Ectopic salivary gland tissue in submucosa of rectum. *Dis Colon Rectum* 1983;26:814-817.
7. Downs-Kelly E, Hoschar AP, Prayson RA. Salivary gland heterotopia in the rectum. *Ann Diagn Pathol* 2003;7:124-126.
8. Maffini F, Vingiani A, Lepanto D, Fiori G, Viale G. Salivary gland choristoma in large bowel. *Endoscopy* 2012;44 Suppl 2 UCTN: E13-E14.
9. Goldblum JR, Lamps LW, Mckenney JK, Myers JL. Rosai and Ackerman's surgical pathology. Volume 1. 11th ed. Philadelphia: Elsevier, 2017.
10. Gheena S, Chandrasekhar T, Ramani P. Heterotopic salivary gland tissue: a report of two cases. *J Nat Sci Biol Med* 2011;2:125-127.
11. Hwang JM, Robertson DI, Magi E. Heterotopic salivary gland tissue at the base of the neck: a case report. *Can J Plast Surg* 2000;8:33-35.
12. Evans CS, Goldman RL. Seromucinous (salivary) ectopia of the perianal region. *Arch Dermatol* 1987;123:1277.
13. Nicholson GW. Heteromorphoses (metaplasia) of the alimentary tract. *J Pathol Bacteriol* 1923;26:399-417.