

A Case of Heterotopic Salivary Gland in the Neck Mimicking a Brachial Cleft Anomaly

Seok Hwa Ko^{ID}, Seong Man Hong, and Yong Bae Ji^{ID}

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, College of Medicine, Hanyang University, Seoul, Korea

새열 기형으로 오인된 경부에 발생한 이소성 침샘조직 1예

고석화 · 홍성만 · 지용배

한양대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

Received July 19, 2022

Revised August 17, 2022

Accepted August 18, 2022

Address for correspondence

Yong Bae Ji, MD, PhD

Department of Otolaryngology-

Head and Neck Surgery,

College of Medicine,

Hanyang University,

222 Wangsimni-ro, Seongdong-gu,

Seoul 04763, Korea

Tel +82-2-560-2368

Fax +82-31-560-2179

E-mail jyb20000@hanmail.net

Heterotopic salivary gland tissue (HSGT) consists of salivary tissue in places where it does not normally exist. Usually, HSGT presents as a draining sinus or nodule of the neck. The pathogenesis of HSGT of the neck remains uncertain. But HSGT in the neck is most widely thought to arise from defective closures and ectodermal heteroplasia of the precervical sinus of His. HSGT in the neck is rare and only a few cases have been reported in Korea. We recently experienced a case of HSGT in the neck presenting as a fistula of the anterior lower neck. We thought this as a 2nd brachial cleft anomaly; however, biopsy revealed HSGT. HSGT in the neck should be considered as one of the causes of a neck mass or fistula in children. Herein, we report this case of HSGT with a literature review.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2023;66(3):203-6

Keywords Branchial cleft cyst; Salivary gland; Salivary gland fistula; Salivary gland neoplasm.

서론

침샘 조직은 일반적으로 이하선, 악하선 그리고 설하선과 같은 주타액선에 주로 위치하며 구강, 인두, 상기도에 분포하는 소타액선에도 존재한다. 이와 같이 침샘조직이 주로 위치하는 곳이 아닌 다른 곳에 침샘조직이 위치하는 것을 이소성 타액선이라고 한다.¹⁾ 이소성 타액선은 림프절, 외이도, 갑상선낭종, 뇌하수체, 하악골, 유양돌기, 중이, 혀, 복장빗장 관절, 갑상선과 부갑상선, 상부 혹은 하부 경부와 같이 매우 다양한 곳에서 보고되었다. 하지만 그중 경부에서 가장 많이 보고되었고 주로 종양, 낭종 혹은 누공의 형태로 나타났다.²⁾ 경부에 발생한 이소성 타액선은 국내에서도 드물게 보고되고 있으나 발생기전은 아직 명확하게 밝혀지지 않고 있으

며,³⁻⁵⁾ 전경부의 히스 누공(precervical sinus of His)의 불완전한 폐쇄와 이로 인한 이조직 신생 혹은 이상 분화가 그 원인으로 생각되고 있다.⁶⁾

경부에 나타난 누공의 경우 감염성질환, 염증성질환, 발생학적 질환들이 있기에 고려해야 할 질환들의 범위가 매우 넓어, 임상증상만으로는 초기에 정확한 진단에 어려움이 있다.⁵⁾ 최근 저자들은 경부에 누공의 형태로 나타난 환자에서 새열 기형으로 판단하여 수술적 치료를 진행하였고 추후 조직검사에서 이소성 타액선으로 확진된 증례를 경험하게 되었다. 되었다. 이에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

3세 여아가 출생 시부터 관찰된 우측 전경부의 누공으로 본원 소아과를 통해 이비인후과에 의뢰되었다. 2일에 한 번 맑은 색의 분비물이 있었으며 특별히 악화 요인은 없었고 염

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://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.

증이나 통증은 없었다고 하였다. 출산력 및 과거력, 가족력상 특이소견은 없었다. 이학적 검사상 우측 경부 중간의 흉쇄유돌근에 누공이 관찰되었고 촉진되는 낭종은 없었다(Fig. 1). 압박 시에도 누공에서 분비물은 나오지 않았으며 압통은 없었다. 양측 외이도와 구인두, 하인두에서 특이소견은 관찰되지 않았다. 제 2 세열 누공 의심하에 시행한 전산화단층촬영

소견상 우측 level III에서 흉쇄유돌근 전방 경계 부위와 피부 사이에 조영 증가되는 누공이 관찰되었다. 누공은 조영이 증가되어 있었으며 흉쇄유돌근의 전연을 따라 상부로 하인두 높이까지 주행이 관찰되었고 인두로의 연결은 불명확 하였다(Fig. 2). 수술은 전신마취하에 누공 주위로 타원형 절개를 가하여 누공을 따라 조직을 박리하였고 level II 위치에

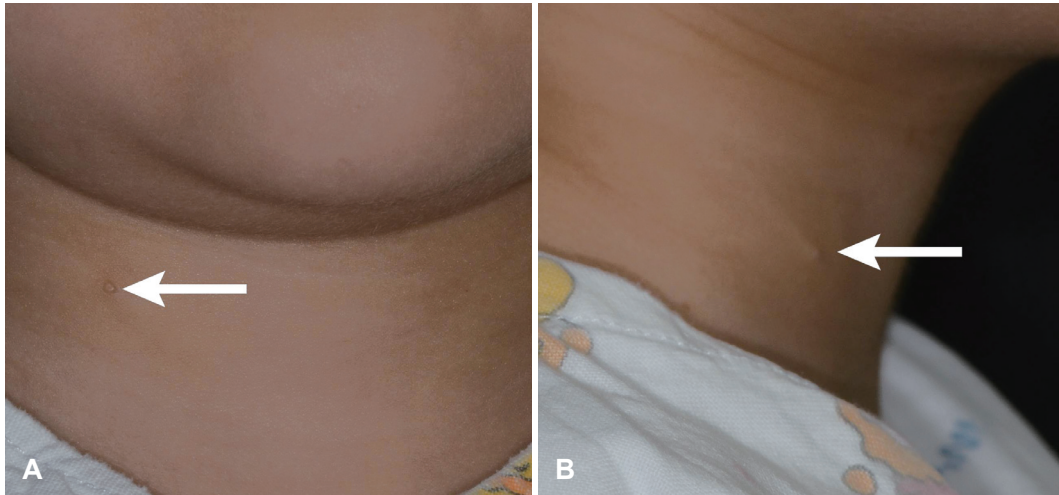


Fig. 1. Anterior (A) and lateral (B) view of neck. Fistula opening at of low anterior border of sternocleidomastoid muscle (arrow).

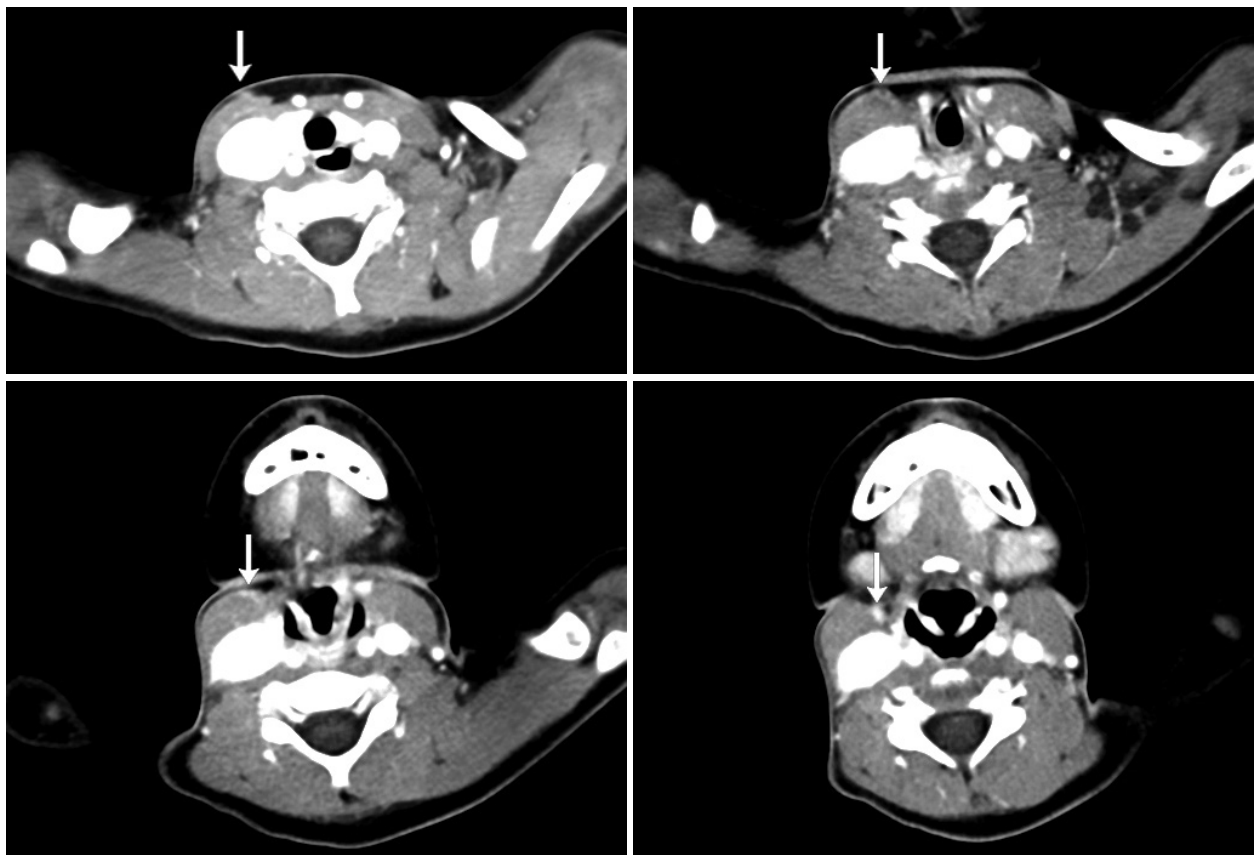


Fig. 2. Radiologic findings. Enhanced tract could be traced from skin at the anterior border of the sternocleidomastoid muscle to pharynx level in CT scan (arrow).

약 1.5 cm 추가 절개를 하여 누공과 연결된 관을 완전히 박리하였으며, 누공은 하인두운상근까지 도달하고 끝까지 박리하고 결찰하여 제거하였다. 이후 피부 봉합을 하고 수술을 마쳤다(Fig. 3). 수술 시 절제된 누공은 약 8 cm 길이였으며 조직검사 결과 타액선의 관 구조 및 파리가 관찰되어 이소성 타액선으로 판명되었다(Fig. 4). 환자는 술후 4일째 퇴원하였고 합병증은 없었으며 술후 6개월까지 재발소견은 없었다.

고 찰

이소성 타액선은 매우 다양한 부위에서 보고된 바가 있으나 경부에서 발생한 경우는 1962년 Jernstrom와 Prietto⁷⁾에

의해 처음으로 보고가 되었다. 이소성 타액선의 발생 기전은 아직 명확하게 밝혀지지는 않았으나 여러 가지 가설이 제시되고 있다. 먼저, 태생기시 세열 기관(brachial apparatus)의 발생과 함께 타액선이 정상적인 이동을 하지 않거나 혹은 이상 하강하여 발생한다는 가설이 있고,^{7,8)} 그 외에 히스 누공의 폐쇄 결함 및 외배엽의 이행성으로 이소성 타액선이 발생한다는 주장도 있다.^{8,9)} 현재는 후자의 주장이 더 널리 받아들여지고 있다.

이소성 타액선은 경부에서 가장 많이 발생하고 좌측보다는 우측, 여자보다는 남자에서 많이 발생한다고 알려져 있다.^{6,10)} 경부에서 발생하는 경우 우측 흉쇄 관절 상부, 흉쇄유돌근의 앞쪽에 발생하는 경우가 많다. 대부분의 경우 출생 시부터

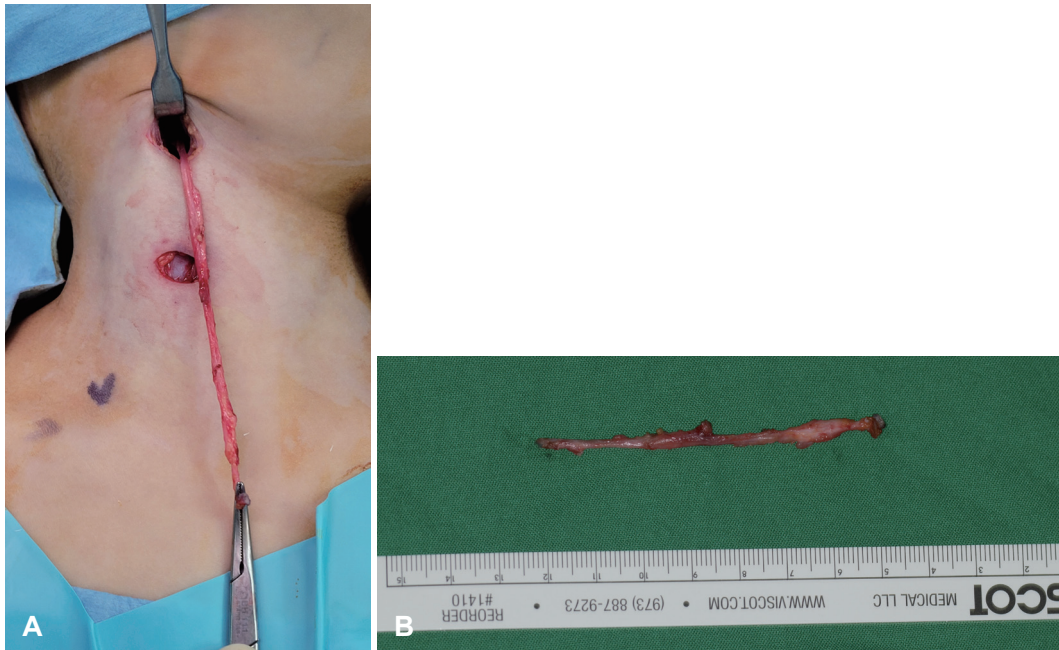


Fig. 3. Operative findings. A: An oval incision was made around the fistula to detach the tissue along the fistula, and an additional 1.5 cm incision was made. B: About 8 cm length fistula tract was dissected from its opening to the pharyngeal wall.

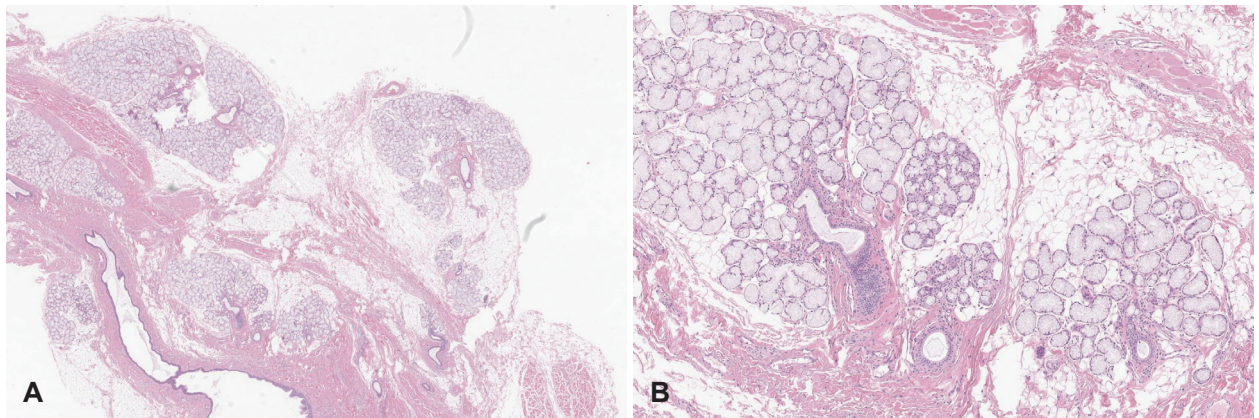


Fig. 4. Histopathologic findings. Striated duct and mucous acini of salivary gland are shown (hematoxylin and eosin stain, A: $\times 40$, B: $\times 200$).

경부에 누공이 있으며 누공을 통해 타액과 유사한 물질을 분비한다. 이런 분비물은 음식물 섭취, 저작 혹은 월경 주기 시 분비량이 증가한다.³⁾ 병리조직학적으로 이소성 타액선에서 가장 흔한 조직 소견은 점액선이나 혼합선이지만, 장액선이 보고되는 경우도 있다.¹¹⁾ 드물기는 하지만 이소성 침샘조직에서도 주요 침샘들에서 발생하는 질병들이 발생할 수 있으며, 이소성 침샘조직에서 발생한 종양 등이 보고된 바가 있다.^{2,8)}

경부에서 발생하는 이소성 타액선은 흉쇄 유돌근의 앞쪽 부위를 따라 누공이 위치하고, 출생 시 흔하게 나타나며, 간헐적인 분비물이 있다는 점에서 새열기형(brachial anomaly), 그중에서도 특히 제 2 새열기형이 누공으로 나타나는 경우 흉쇄유돌근의 상 2/3과 하 1/3이 접하는 전방에 주로 나타나기 때문에 제 2 새열 누공과 감별 진단이 중요하다.¹²⁾ 또한 드물지만 제 3과 제 4 새열 누공의 가능성도 고려해야 한다. 분비물의 양상에서 두 질환은 차이를 보이는데 이소성 타액선이 투명하고 침과 같은 양상의 분비물이 많은데 반해, 새열누공에서는 점액성 혹은 농성의 분비물이 분비되는 경우가 많다. 또한 이소성 타액선이 다양한 방향으로 짧게 이어지는데 반해, 제 2 새열 기형은 외부 개구부로부터 경동맥조를 따라서 상행하는데 경동맥의 사이를 지나 설골 상부에서 설하 신경에 도달하여 이 신경을 돌아서 중인두 수축근 높이에서 인두벽을 뚫고 구개 편도와의 개구한다.¹³⁾ 따라서 대개는 새열기형이 이소성 타액선에 비해 광범위한 수술범위를 요한다. 하지만 본 증례에서는 누공이 경부하부부터 하인두 높이까지 연결되어 있어 제 2 새열 기형의 소견과 매우 유사하였다.

이소성 타액선의 치료는 절제술이 원칙이며 수술 전 타액선 조영술을 시행하여 정확한 수술범위를 정한 후 절제를 시행해야 합병증 및 재발의 가능성이 낮아 수술 후의 예후가 좋은 것으로 알려져 있다.¹⁴⁾ 본 증례에서도 수술 전에는 제 2 새열 누공을 의심하였고 수술을 시행하였다. 누공은 흉쇄유돌근의 전면부 전면 경계의 하단부에서 시작되어 인두벽까지 이어지는 양상을 보였다. 상부에 추가적 치부절개를 통해 누공을 끝까지 박리하여 완전히 제거하였고 이후 조직검사서 이소성 타액선으로 확진이 되었다. 본 증례에서는 타액선 조영술을 시행하지 않았으나 술전 CT 스캔을 통해 누공의 주행경로를 예측하였기 때문에 완전 절제가 가능하였다.

국내에서는 1989년 Choi 등⁴⁾의 보고 이후 수차례 이소성 타액선이 보고된 바가 있으나,³⁾ 본 증례와는 달리 단순 낭 형태로 나타났다. 저자들은 피부부터 인두벽으로 이어지는 누공의 형태로 나타나 제 2 새열 기형으로 오인된 이소성 타액선을 경험하고 드문 증례로서 경부의 종괴나 누공의 감별진단 시 이를 염두에 두어야 할 것으로 생각하여 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

Acknowledgments

This research was supported by the Basic Science Research Program through the National Research Foundation of Korea(NRF) funded by the Ministry of Education (2021R111A4A01051258).

Author Contribution

Conceptualization: Yong Bae Ji, Seok Hwa Ko. Data curation: Seok Man Hong, Seok Hwa Ko. Funding acquisition: Yong Bae Ji. Supervision: Yong Bae Ji. Writing—original draft: Seok Hwa Ko. Writing—review & editing: Yong Bae Ji.

ORCIDs

Seok Hwa Ko <https://orcid.org/0000-0002-4447-6479>
 Yong Bae Ji <https://orcid.org/0000-0002-0182-7865>

REFERENCES

- 1) Sim HB, Chae SY, Jang YH, Lee SJ, Kim DW, Lee WJ. Accessory nipple-like ectopic salivary gland in the anterior neck. *Korean J Dermatol* 2015;53(10):807-9.
- 2) Rodgers GK, Felder H, Yunis EJ. Pleomorphic adenoma of cervical heterotopic salivary gland tissue: Case report and review of neoplasms arising in cervical heterotopic salivary gland tissue. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1991;104(4):533-6.
- 3) Cho JH, Kim JJ, Kang WS, Song YJ. A case of ectopic salivary gland with fistula in the anterior neck. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2011;54(12):862-5.
- 4) Choi EH, Cho SW, Lee SH. Ectopic salivary gland tissue of the neck. *Korean J Dermatol* 1989;27(6):748-51.
- 5) Kim BG, Kim MB, Lee JB, Oh CK, Jang HS, Kwon KS. Cervical fistula by ectopic salivary gland. *Korean J Dermatol* 2003;41(3):394-6.
- 6) Haemel A, Gnepp DR, Carlsen J, Robinson-Bostom L. Heterotopic salivary gland tissue in the neck. *J Am Acad Dermatol* 2008;58(2):251-6.
- 7) Jernstrom P, Prietto CA. Accessory parotid gland tissue at base of neck. *Arch Pathol* 1962;73:473-80.
- 8) Ramasamy K, Lahuri YS, Gani NA, Shamsudin NH. Ectopic carcinoma ex-pleomorphic adenoma in the lower neck: A rare entity at a rare location. *Bangladesh J Medical Sci* 2021;20(1):190-3.
- 9) Youngs LA, Scofield HH. Heterotopic salivary gland tissue in the lower neck. *Arch Pathol* 1967;83(6):550-6.
- 10) Ferlito A, Bertino G, Rinaldo A, Mannarà GM, Devaney KO. A review of heterotopia and associated salivary gland neoplasms of the head and neck. *J Laryngol Otol* 1999;113(4):299-303.
- 11) Lassaletta-Atienza L, López-Ríos F, Martín G, Benito A, Bronchalo F, Martínez-Tello FJ, et al. Salivary gland heterotopia in the lower neck: A report of five cases. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1998;43(2):153-61.
- 12) Thatcher AL. Congenital and inflammatory neck masses in children. In: Flint PW, Haughey BH, Lund VJ, Robbins KT, Thomas JR, Lesperance MM, Francis HW, editors. *Cummings Otolaryngology: Head and Neck Surgery*. 7th ed. Philadelphia, PA: Elsevier;2021. p.2989-3001.
- 13) Tae K, Jeong SW, Lee EJ, Lee SH, Kim KR, Park CW, et al. A clinical study of branchial anomaly. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2002;45(10):998-1003.
- 14) Parsons RW. Heterotopic cervical salivary gland. Case report. *Plast Reconstr Surg* 1972;49(4):464-5.