

식도에 발생한 이소성 피지샘 - 1예 보고 -

신정하 · 정지한 · 최현주 · 유진영
강석진 · 이교영

가톨릭대학교 의과대학 병리학교실

접 수 : 2006년 6월 5일
게재승인 : 2006년 8월 18일

책임저자 : 유진영
우 442-060 경기도 수원시 팔달구 지동 93
가톨릭대학교 성빈센트병원 병리과
전화: 031-249-7593
Fax: 031-244-6786
E-mail: jinyyoo@vincent.cuk.ac.kr

Ectopic Sebaceous Glands in the Esophagus - A Case Report -

Jung Ha Shin, Ji Han Jung, Hyun Joo Choi, Jinyoung Yoo, Seok Jin Kang
and Kyo Young Lee

Department of Pathology, St. Vincent's Hospital, The Catholic University of Korea, Suwon, Korea

There are few reports of the endoscopic and histological features of ectopic sebaceous glands in the esophagus. Recently we observed a 2 mm whitish flat elevated nodule in the lower esophagus. A biopsy was taken under the clinical impression of a papilloma or ulcer scar. Histology revealed normal esophageal mucosa with mature ectopic sebaceous glands located in the lamina propria with no visible hair follicles. We report this case with a brief review of the literature related to the histological findings and histogenesis of esophageal ectopic sebaceous glands.

Key Words : Ectopic tissue; Sebaceous glands; Esophagus

피지샘은 모낭과 밀접하게 연관되어 모발피지샘 구조를 형성하며, 체표면에 고르지 않게 분포되어 있고 안면과 두피에 가장 많이 나타난다. 이소성 피지샘은 입술, 구강, 이하선, 외부 생식기와 같은 외배엽에서는 드물게 발견된다. 그렇지만 식도와 같은 내배엽 기원의 장기에서 나타나는 것은 아주 드물다.¹ 입술과 구강에서 발생하는 포디세 병은 화상에 의한 양성 병변으로 생각되지만, 식도의 이소성 피지샘은 선천적인 치환인지 후천적인 화생의 결과인지 확실하지 않다. 식도의 이소성 피지샘은 De La Pava와 Pickren²이 1962년 처음 보고하였고, 현재까지 외국 문헌에는 부검에서 6예, 생검에서 약 22예가 보고되었으며 국내 문헌에는 2예가 보고되었다.^{3,4}

증 례

31세 남자 환자가 반년 동안 약 3 kg의 체중이 감소하여 내원하였다. 환자는 신장 168.6 cm, 몸무게 81.8 kg으로 과체중이었으며, 평소 특이 증상은 없었다. 담배는 지난 10년간 하루 반갑 정도 피웠으며, 술은 한 달에 2번 정도 소량을 섭취하였다. 3주 전 말라리아 약을 복용한 적이 있으나, 혈액 및 생화학적 검사 결과는 정상이었다.

내시경 검사를 시행한 결과 송곳니에서 37 cm 아래에 있는 식도의 하부에서 작은 황색 플라크가 보여, 췌양 흉터 또는 유두종으로 임상 진단하고 생검을 하였다(Fig. 1).

조직학적으로 식도 표면은 비각질화 중층 편평 상피로 피복되어 있었고, 상피와 평활근 다발 사이에 있는 고유관과 점막하 조직에서 비교적 큰 피지샘이 관찰되었다. 피지샘은 10개 이상의 많은, 완전히 성숙한 피지샘 소엽들로 이루어져 있었다. 피지샘 세포들은 등근 지방 과립에 의해 핵이 함입되고, 세포질은 포말상을 보였다. 소엽 주변부에서는 한 층 이상의 기저 세포층이 보였고, 기저 세포에서는 지방 비말을 보기 힘들었다. 피지샘 소엽들은 하나의 피지샘 관으로 연결되어 있어 식도에서 발생한 이소성 피지샘으로 진단하였다(Fig. 2).

고 찰

식도에 존재하는 이소성 피지샘은 매우 드물어서 1962년 부검에서 처음 보고되었다. 1976년 Zak와 Lawson⁵이 적혈구 증가증이 있고 비만이 있는 노인의 부검에서 식도 중간 부위에서 염주 모양의 편평한 결절로 나타난 피지샘의 육안 소견을 처음 기술하였다. 1978년 Ramakrishnan과 Brinker⁶가 십이지장궤양으

로 치료를 받던 44세 흑인 남성에게서 황색의 다발성 구진으로 나타난 식도의 이소성 피지샘을 내시경으로 처음 관찰하였다. 그 후 지금까지 국외 22예, 국내 2예가 보고되었다(Table 1).^{3,4,6-19} 지금까지 특이한 임상 증상은 기술된 바가 없으며, 내시경 소견상 식도암으로 오진된 경우가 있었다.

본 예에서는 내시경 검사 결과 작은 황색의 플라크가 보여 췌장 흥터나 유두종이 의심되었다. 다른 증례들을 살펴보면 호발 위치는 없으며 대부분 5 mm 정도의 작은 황색 구진이나 결정양이 보이고, 드물게 중앙에 개구부가 보여¹⁴ 감별에 도움이 되기도 한다. 조직학적으로 피지샘 주변에서 비특이적 염증 반응이 보이기도 하는데, 이는 피지샘에서 분비된 지방 물질로 인한 염증 때문인 것으로 생각된다. 그러나 본 예에서는 염증 세포 침윤이 거의 없었다. Bertoni 등¹⁴이 보고한 3예의 환자들은 가슴이 쓰린 증상을 호소하였는데, 이러한 증상은 2예에서 보인 피지샘 주위 염증과 1예에서 보인 역류성 식도염과 연관이 있음을 암시하는 것이다.

식도에 이소성 피지샘이 발생하는 기원은 분명히 밝혀지지 않았다. 식도의 이소성 피지샘과 관련하여 가장 흥미로운 것은 식

도는 내배엽 기원인 데 반해 피지샘은 외배엽 기원의 구조라는 점이다. 식도에 이소성 피지샘의 발생기전은 명확히 밝혀지지 않았으나 발생학적 원인 또는 화생에 의한 것이라 추측되는데, 후자의 견해가 더 지배적이다. 먼저 현재까지 소아에게서 발생한 이소성 피지샘은 한 번도 보고된 적이 없고, 나이 든 사람에게서 더 많이 발생한다는 점을 들어 발생학적 원인이 아니라는 견해가 있다. 덧붙여 화생의 결과로 생각하는 몇 가지 의견이 있는데, 1976년 Zak과 Lawson⁵은 다양하게 분화할 수 있는 미분화 세포가 피지샘으로 화생한 것이라고 하였고, 1987년 Betta 등¹¹은 점막하층의 점액샘이 고유관으로 유입되어 화생한 것이라고 주장하였다. Bettat 등¹¹은, 1974년 Linhartova²⁰가 539개의 침샘 중 8.5%에서 피지샘이 보인다고 한 점을 근거로, 식도에서도 침샘의 점액샘을 닮은 샘이 점막하층에 존재하기 때문에 얼마든지 피지샘이 나타날 가능성이 있다고 주장하였다. 1995년 Hoshika 등¹⁷은 53세 여자에게서 직경 0.5 cm 이내의 이소성 피지샘들이 100개 이상 보이는 예를 보고하였는데, 많은 피지샘들의 배열 양상이 식도 점막하층의 점액샘들과 비슷하다는 점, 점액샘과 피지샘 모두 선과 관의 비율이 2:1로 비슷하다는 점을 들어 점막하층의 식도샘이 화생한 것이라고 하였다. 1999년 Nakanishi 등¹⁸은 이소성 피지샘이 식도 상피의 기저세포와 같이 사이토크라틴 14를 발현한다는 점을 들어 상피 자체가 화생의 과정을 밟아 생성된 것이라고 하였다.

이처럼 발생기전은 일치하지 않으나 이러한 보고들은 이소성 피지샘이 화생에 의해 발생한다고 주장한다는 점에서 일치를 보이고 있다. 그러나 화생을 설명해줄 만한 원인은 아직 밝혀지지 않았다. 17 증례를 모아 분석해본 결과 환자의 증상이나 흡연, 음주와 같은 생활 습관과는 유의한 연관성이 없었으며, 몇몇 증례를 추적 관찰한 결과 병변의 변화가 나타나지 않았다는 점을 들어 반응성을 보이는 화생이 아니라는 주장도 있다.¹⁴

앞으로 소아의 식도에서도 이소성 피지샘이 발견되거나 다른 형태의 이소성 피지샘이 보고된다면 그 기원을 밝히는 데 도움이 될 것이다. 그리고 식도에 발생하는 이소성 피지샘은 임상적으로



Fig. 1. Endoscopic photograph shows a small whitish plaque.

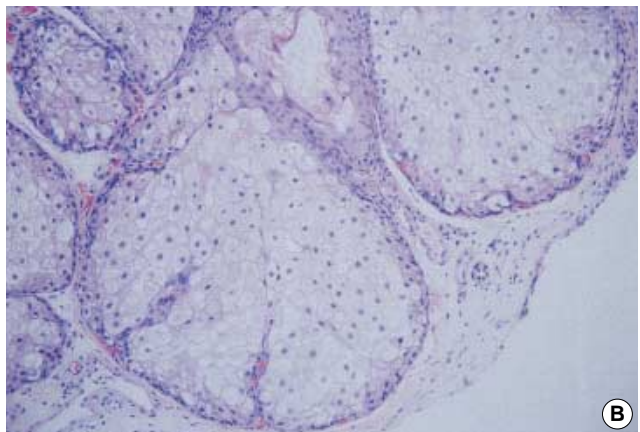
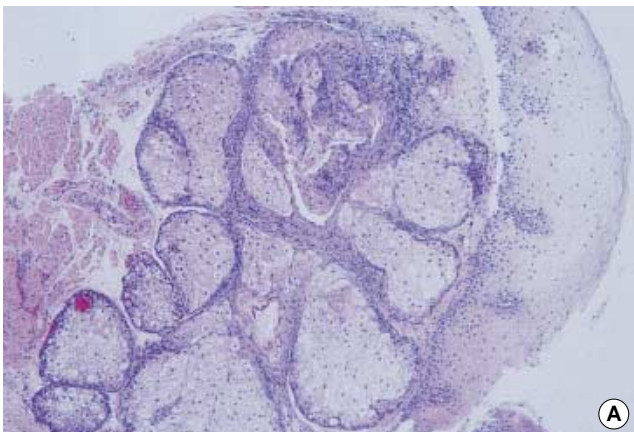


Fig. 2. Microscopic photograph shows numerous sebaceous glands in mucosa and submucosa of the distal esophagus (A). The cells exhibit microvesicular vacuolization with small dark nuclei (B).

Table 1. Summary of the reported cases

Case	Authors (ref)	Age/Sex	Associated symptom or finding	No.	Location	Endoscopic appearance
1	Ramakrishnan and Brinker (6)	44/M	duodenal ulcer	>10	D	Y, papular-oval
2	Ramakrishnan and Brinker (6)	60/F	duodenal ulcer	>10	LE	Y, papular-oval
3	Salgado <i>et al.</i> (7)	28/M	duodenal ulcer	1	LE	Y, elevated, rounded
4	Merino <i>et al.</i> (8)	38/F	GERD			
5	Bambirra <i>et al.</i> (9)	45/F	dysphagia abdominalgia	>12	D	Y, papular-oval
6	Bambirra <i>et al.</i> (9)	30/F	duodenal ulcer	1	ME	Y, rounded papula
7	Auld <i>et al.</i> (10)	40/M	postprandial discomfort	1	UE	Y, grey plaque-like
8	Betta and Spinoglio. (11)	73/M	chronic gastritis	NS	LE	Buff-colored maculae
9	Hoshihara <i>et al.</i> (12)	67/M	heartburn	30	ME	Y, papular
10	Hoshihara <i>et al.</i> (12)	66/M	gatric erosion	1	ME	Y, elevated
11	Kumagai <i>et al.</i> (13)	35/M	duodenal ulcer	1	ME	Y, irregular
12	Kumagai <i>et al.</i> (13)	50/M	NS	NS	UE	Y, nodules
13	Kumagai <i>et al.</i> (13)	32/F	NS	NS	UE	Y, nodules
14	Kumagai <i>et al.</i> (13)	55/F	NS	NS	ME	Y, nodules
15	Bertoni <i>et al.</i> (14)	68/F	heartburn	>100	D	Y, flat irregular
16	Bertoni <i>et al.</i> (14)	59/M	heartburn	1	ME	Y, oval plaque
17	Bertoni <i>et al.</i> (14)	44/F	heartburn	>10	UE, ME	Y, flat irreular
18	Marcial and Villafana. (15)	56/M	heartburn	NS	UE, ME	Y, small plaque
19	Radhi (16)	62/M	GERD	1	20 cm from incisors	Y, small patch
20	Hoshika <i>et al.</i> (17)	53/F	NS	>100	ME, LE	Y, round elevated
21	Bae <i>et al.</i> (3)	47/M	postprandial pain, EGC	1	ME	Y, irregular lobulated nodule
22	Nakanishi <i>et al.</i> (18)	79/M	heartburn, SCC	>100	ME	Y, oval elevated
23	Harada <i>et al.</i> (19)	50/M	NS	NS	LE	Y, irregular lobulated plaque
24	Kim <i>et al.</i> (4)	54/M	epigastric pain	5	LE	Y, elevated
25	Present case	31/M	NS	1	LE	Y, elevated

NS, not specified; GERD, gastroesophageal reflux disease; EGC, early gastric cancer; SCC, esophageal squamous cell carcinoma; D, diffuse; LE, lower esophagus; ME, middle esophagus; UE, upper esophagus; Y, yellow.

황색 결절이나 플라크로 나타나므로 내시경 진단이 가능하고, 가슴이 쓰린 증상이나 역류성 식도염 소견이 이소성 피지샘 주변에 발생하는 염증과도 관련이 있음을 유의할 필요가 있다.

참고문헌

- Guiducci AA, Hyman AB. Ectopic sebaceous glands. A review of the literature regarding their occurrence, histology and embryonic relationships. *Dermatologica* 1962; 125: 44-63.
- De La Pava S, Pickren JW. Ectopic sebaceous glands in the esophagus. *Arch Pathol* 1962; 73: 397-9.
- Bae JY, Chon CY, Kim H. Sebaceous glands in the esophagus. *J Korean Med Sci* 1996; 11: 271-4.
- Kim SM, Im EH, Jung SH, *et al.* A case of ectopic sebaceous glands in the esophagus. *Korean J Gastrointest Endosc* 2005; 31: 320-2.
- Zak FG, Lawson W. Sebaceous glands in the esophagus. First case observed grossly. *Arch Dermatol* 1976; 112: 1153-4.
- Ramakrishnan T, Brinker JE. Ectopic sebaceous glands in the esophagus. *Gastrointest Endosc* 1978; 24: 293-4.
- Salgado JA, Andrade Filho Jde S, Lima GF Jr, Savi A, Fonseca LM, de Oliveira CA. Sebaceous glands in the esophagus. *Gastrointest Endosc* 1980; 26: 150.
- Merino MJ, Brand M, Livolsi VA, McCallum RW. Sebaceous glands in the esophagus diagnosed in a clinical setting. *Arch Pathol Lab Med* 1982; 106: 47-8.
- Bambirra EA, de Souza Andrade J, Hooper de souzq LA, Savi A, Ferreira Lima G, Affonso de Oliveira C. Sebaceous glands in the esophagus. *Gastrointest Endosc* 1983; 29: 251-2.
- Auld RM, Lukash WM, Bordin GM. Heterotopic sebaceous glands in the esophagus. *Gastrointest Endosc* 1987; 33: 332-3.
- Betta PG, Spinoglio G. Ectopic sebaceous glands in the esophageal mucosa. *Pathologica* 1987; 79: 801-3.
- Hoshihara Y, Hashimoto M, Yoshida Y, Hayakawa K, Fukuchi S, Unakami M. Ectopic sebaceous glands in the esophagus: Report of two cases. *Dig Endosc* 1991; 3: 247-9.
- Kumagai Y, Makuuchi H, Ohmori T, Mukai M. Four cases of ectopic sebaceous glands confirmed endoscopically in the esophagus. *Dig Endosc* 1993; 5: 238-44.
- Bertoni G, Sassatelli R, Nigrisoli E, Conigliaro R, Bedogni G. Ectopic sebaceous glands in the esophagus: report of three new cases and review of the literature. *Am J Gastroenterol* 1994; 89: 1884-7.

15. Marcial MA, Villafana M. Esophageal ectopic sebaceous glands: endoscopic and histologic findings. *Gastrointest Endosc* 1994; 40: 630-2.
16. Radhi JM. Presence of sebaceous glands in the esophagus. *Am J Gastroenterol* 1995; 90: 1371.
17. Hoshika K, Inoue S, Mizuno M, Iida M, Shimizu M. Endoscopic detection of ectopic multiple minute sebaceous glands in the esophagus. Report of a case and review of the literature. *Dig Dis Sci* 1995; 40: 287-90.
18. Nakanishi Y, Ochiai A, Shimoda T, *et al.* Heterotopic sebaceous glands in the esophagus: histopathological and immunohistochemical study of a resected esophagus. *Pathol Int* 1999; 49: 364-8.
19. Harada A, Tatsumi Y, Matsumoto T, Tani T, Nishida H, Katsura K. Ectopic sebaceous glands. *Gastrointest Endosc* 2004; 60: 97.
20. Linhartova A. Sebaceous glands in salivary gland tissue. *Arch Pathol* 1974; 98: 320-4.