

갑상선관 잔유조직에서 발생한 유두상 선암 1례

연세대학교 의과대학 이비인후과학교실
최흥식·김창규·김명상

= Abstract =

A Case of Papillary Adenocarcinoma Originated from Thyroglossal Duct Remnant

Hong Shik Choi, M.D., Chang Kyu Kim, M.D., Myung Sang Kim, M.D.
Department of Otorhinolaryngology, Yonsei University College of Medicine

Thyroglossal cysts are common abnormalities of thyroid development that present as palpable and usually asymptomatic neck masses. The development of carcinoma in a cyst of this type is extremely rare. Since 1915, fewer than 100 cases have been reported.

Authors report 1 case of thyroglossal duct carcinoma in 25-year-old female patient. Comparing with the common thyroglossal duct cyst, the mass was larger and harder, and had irregular surface. Thyroid scan, fine needle aspiration biopsy and MRI were included as the preoperative evaluation. Wide local excision of the mass including the overlying skin with the bilateral supraomohyoid neck dissection was done and postoperative radiotherapy(5040 cGy) was taken. The patient has been followed for 5 months without evidence of recurrence.

KEY WORDS : Thyroglossal duct carcinoma · Papillary adenocarcinoma.

서 론

갑상선관낭종은 갑상선 발생에서 생기는 흔한 선천성 기형으로 대개 무증상의 경부종물의 소견을 보인다. 여기에서 발생하는 종양은 매우 드물다. 1915년 이후로 보고된 예가 100개 미만^{1,2)}이다. 본 증례에서는 일반적인 갑상선관낭종과 비교하여, 그 종양은 더욱 더 크고 단단한 질감과 불규칙한 표면을 가지고 있었다. 갑상선 동위원소 촬영, 세침 흡입술과 자기공명검사 등이 수술전 검사로 시행되었다. 종양을 덮고 있는 피부와 함께 광범위한 국소 절제술과 상경갑상선 입파선 적출술등을 시행하

였으며 술후 방사선치료도 병행하였다. 그 후 환자는 5개월 동안 종양의 재발없이 추적 관찰되고 있다. 저자들은 25세 여자에서 발생한 갑상선관 잔유조직에서 발생한 유두상 선암 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 이 ○ 연, 25세, 여자
초진일 : 1993년 9월 21일
주 소 : 전경부 중앙 종물(설골 부위)

가죽력 및 기왕력 : 특이 사항 없음

현병력 및 이학적소견 : 약 3년간의 설골부 중앙에 위치한 종물을 주소로 간헐적으로 개원병원에서 치료하였으나 증상의 호전없이 최근 들어 종물이 커지는 경향이 있어 본원에 방문하였다. 내원하였을 당시 이학적 검사상 5~4cm의 비교적 단단한 질감의 전경부 중앙이 갑상선골 직상부의 정중선에 위치하고 있었다(그림 1). 촉진상 갑상선의 이상은 없었으나 우측 하악입파절과 양측 경부의 상심경 입파절 level II 와 III에서 다수의 입파절이 커져있는 소견이 관찰되었다.

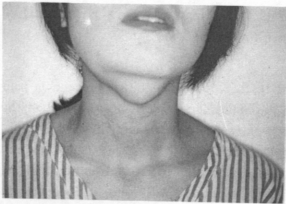


Fig. 1. Frontal view of neck : Anterior neck mass(5×4cm) was noted on level of hyoid bone and submental area.

전신상태 : 비교적 양호하였다.

임상검사 소견 : 심전도, 혈액, 뇨 및 간기능 검사 등은 정상범위내 있다.

갑상선 호르몬 소견 : 정상 범위, T3 : 106 mg/dl, T4 : 7.9 µg/dl, FT4 : 1.6 mg/dl

세침 흡입술 : 악성 종양세포는 관찰되지 않았다.

경부초음파 검사 : 전경부 중앙에 다양한 크기의 낭종이 있으며 부분적으로 석회화된 종물등이 동반되어 있었다(그림 2). '우'와 '아' 발생시 우측 설근의 운동저하의 소견이 관찰되어 종양의 침윤이 의심되었다.

방사선 소견 : 자기공명검사의 T1-weighted image에서는 액체가 차 있는 다수의 낭종

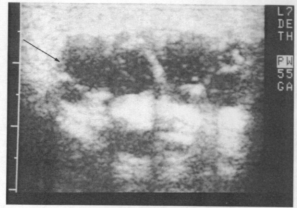


Fig. 2. Neck ultrasonography showed multiple and variable cystic mass on submental area. It was involved and calcified solid mass(arrow).

이 전경부 중앙과 우측 하악 부위에 존재하며 solid compartment가 포함되어 있었다(그림 3). 또한 우측 하악 입파절이 커져있는 소견이 관



Fig. 3. T1-weighted axial MRI imaging showed multiloculated fluid collected cystic lesion on right submandibular and anterior mid neck area(arrow).

찰되었다. T2-weighted image에서는 병변의 signal이 증가되어 있었고(그림 4), 피부침습이 의심되는 소견이 관찰되었다. 99mTc를 이용한 갑상선동위원소촬영에서는 특이한 소견이 관찰되지 않았다.



Fig. 4. T2-weighted axial MRI imaging showed high signal intensity of primary site(arrow).

수술 소견 및 경과 : 1993년 10월 7일 종양에 대한 광범위한 국소 제거술 및 양측의 상전갑 설골 입파선 적출술 등을 시행하였다. 양측 경부의 level I, II, III에 다수의 입파절이 커져 있었으며(그림 5), 일차적 병변이 구강저의 genioglossus muscle에 유착되었다. 수술후 2차 감염을 예방하기 위해 항생제를 투여하였으며 수술 후 15일째 퇴원하였다.

병리조직학적 소견 : 검색된 조직은 7~3 cm 크기의 등근 연조직과 이에 부착된 설골, 그리고 양측 입파절로 구성되어 있었다. 연조직의 바깥쪽은 5~1.5 cm의 피부와 지방조직으로 둘

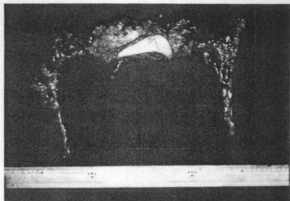


Fig. 5. Surgical specimen : Wide local excision of primary site and bilateral suprahyoid neck dissection.

러쌓여 있었고 가운데 부분은 불규칙한 낭성 구조와 함께 관상구조로 되어 있었다. 개개의 낭성구조내에는 잘 발달된 유두상 종양 조직과 교질상 물질로 채워져 있었으며, 이들 유두상 구조는 비교적 폭이 넓은 혈관-섬유성 심지와 이들을 둘러싸고 있는 한층의 입방형 세포로 구성되어 있었다(그림 6). 이들 세포는 서로 비슷한 크기이면서도 양 옆으로 서로 중첩되는 경향이 강하였다. 세포질은 호산성이고 팽창적으로 투명하였다. 핵은 등글고 핵질이 적으며 핵막만이 뚜렷하게 보이는 이른바 Orphan Annie eye 핵상을 보였다. 사소체(psammoma body)(그림 7)는 간혹 유두상 구조내 및 주위 공간내에서 관찰되었고 일부 유두상 구조는

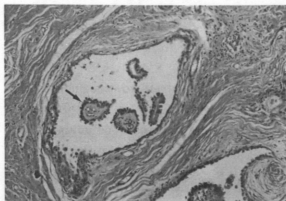


Fig. 6. Microphotograph showed papillary character of tumor(arrow-Papillary carcinoma). (H & E stain, $\times 100$)

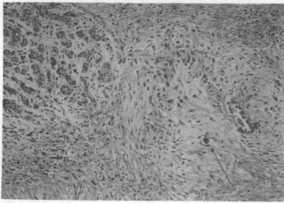


Fig. 7. Microphotograph showed psammoma body (arrow-Psammoma body). (H & stain, $\times 100$)

완전히 총상화된 석회침착을 보였다. 그리고 중앙주위 결체조직에서는 중증도 이상의 반응성 염증을 동반하고 있다. 양측 임파절증 level III에서 유두상 종양 조직이 전이된 소견이 관찰되었다.

술후 방사선 치료 : 1993년 11월 12일부터 1994년 1월 15일까지 총 5040cGy를 조사하였다.

고 찰

태생학적으로 갑상선관은 혀의 맹공에서 시작하여 전경부에 이르는 어느 부위에서나 생길 수 있기 때문에 갑상선관 잔유조직에서 동반될 수 있는 변위 갑상선 조직은 설부, 설하부, 설골 하부 또는 설골 상부 등의 어느 곳에든지 발견될 수 있는데 특히 설골 하부에 흔하다⁸⁹⁾. 조직학적으로 갑상선관의 내면 상피는 주로 중층 편평 상피(stratified squamous epithelium) 혹은 위중층 섬모 원주 상피(pseudostratified ciliated columnar epithelium)로 되어 있으며 드물게 이행 상피(transitional epithelium), 입방 상피(cuboidal epithelium) 등도 나타난다²⁰⁾. 갑상선 조직이 갑상선관 낭종에서 발견될 때는 1%에서 70%까지 다양하게 보고되어 있다. 갑상선관 잔유조직에서 일차적으로 발생하는 악성 종양은 매우 드물며 병리조직

학적으로 유두상 선암(papillary adenocarcinoma)이 가장 흔하여 75~85%를 차지하며 여포상 선암(follicular adenocarcinoma), 유두상과 여포상의 혼합형(mixed type), 편평 상피암(squamous cell carcinoma), 퇴행선암(anaplastic adenocarcinoma)의 순을 보인다^{3,13,14)}. 발생율의 남녀비는 약 1:2로 여자에서 약간 높고 연령 분포는 6세에서 80세까지로 광범위하며 잔유조직에서 생기는 유두상 선암은 정상 갑상선 조직의 변위(ectopic nest)로 내에 악성 변성이 일어나는 것으로 방사선(radiation)과 그 발생 원인에 관계가 있다고 보았다.

한편 Nuttal¹⁰⁾은 정중선 경부낭종의 유두상 선암이 임상적으로는 갑상선에서 발견되지 않는 경우가 이차적으로 전이된 결과라고 주장했다. 또 Livolsi 등⁸⁾은 정중부 경부의 낭종에는 2가지 종류가 있는데 조직학적 검사상 변위 갑상선 조직이나 갑상선 갑상선관 낭종의 증거가 없는 낭종형 유두상 선암(cystic papillary adenocarcinoma)인 경우와 변위 갑상선 조직과 갑상선관 낭종의 증거와 함께 유두상 선암이 발견되는 경우라고 하였다. 전자의 경우에는 주갑상선 조직에서 전이가 일어날 가능성이 높은 반면 후자의 경우에는 실제 변위 갑상선 조직에서 일차적으로 생긴 악성종양으로 믿어진다. 본 예의 경우에는 임상적 소견상으로는 병리 조직학적 소견 등으로 미루어 보아 후자에 속하는 것 같다.

임상적으로는 종양은 위에서 언급한 바와 같은 경부의 특징적 위치에 국한되어 있는 경우가 대부분이며 종양의 크기는 다양하나 주로 2~4cm의 범위에 속하며 크기와 악성과의 관계는 없는 것으로 알려져 있다^{3,13)}. 대개 무통성이며 크기의 급격한 변화가 있는 종괴가 만져지는 것이 주증상이며 드물게 연하곤란, 동통, 예성, 체중감소, 농분비 등이 나타나는 경우도 있고 임파절의 전이는 약 11.3%에서 발생하며 그들중 절반은 수술전에 인식될 수 있다³⁾.

갑상선관에서 일차적으로 발생한 악성종양의 진단 기준은 첫째, 암조직이 혀의 맹공에서 설골을 지나 전경부에 이르기까지의 경로나

분명한 갑상선관 잔유조직에 국한되어 있어야 한다. 둘째, 주갑상선이 병리조직학적으로 검사상 압조직이 없어야 하는데¹⁰⁾, 수술전에 갑상선관암의 진단을 내리기는 어렵다.

수술전 세침 흡입술을 시행하여 세포병리 검사를 시행함은 의미가 있을 것으로 생각된다. 그리고 갑상선 동위원소 촬영 및 갑상선 기능 검사 등을 시행함으로써 예기치 못한 주갑상선 내의 병변이나 변위 갑상선 조직, 국소적 혹은 전신적 종양의 전이를 발견할 수 있다.

갑상선관암의 치료는 병리적 소견에 따라 외과, 내과 및 방사선 치료 등의 복합적 치료가 이루어져야 한다.^{6,8,13,15)} 대개 갑상선관암은 주갑상선에 발생한 악성 종양과 거의 유사한 생물학적 특성을 보인다. 수술전 악성종양의 진단을 못하는 경우가 대부분이며 수술시 얻어진 조직 표본을 절개하여 낭종벽에서 유두상 조직유무를 확인하여야 한다. 만약 악성 병변의 의심되면 동결 절편 검사를 시행하여 악성조직으로 확인되면 수술시야에서 갑상선관 낭종이 있었던 부분, 갑상선의 병변유무, 림프조직의 전이 유무 등을 자세히 살펴보아야 한다. 이렇게 하여 별다른 병변이 없으면 Sistrunk 술식 등의 광범위 국소 제거술 만으로도 충분히 치료가 될 것으로 생각된다.

주갑상선 종양이 발견되어 악성으로 확인되면 갑상선 적출술이 시행되어야 하나 예방적 성격을 띤 갑상선 전적출술은 별 의미가 없는 것으로 생각된다⁸⁾. 또한 임파절 전이가 있는 경우에는 갑상선 적출술 및 경부 임파 제거술이 시행되어야 하며 수술후 갑상선 자극 호르몬 분비를 적게 하기 위해 갑상선 호르몬제의 투여나 방사선 I¹³¹, 경부의 방사선 치료 등이 적절히 사용되어야 한다.

수술후에는 정기적인 추적 관찰로 재발 및 전이를 발견할 수 있는데 전이는 비교적 드물며 장기적 예후는 매우 좋은 것으로 알려져 있으며 치유율이 95%에 이르는 것으로 보고되어 있다.^{4,7,12)}

저자들은 최근 갑상선관 잔유조직에서 일차적으로 발생한 것으로 추측되는 유두상 선암을 치험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- 1) 강병길·유창희·정덕희 외 : 갑상선관 낭종의 임상적 고찰. 한이인지 19(4) : 95~99, 1976
- 2) 김광현·홍순관 : 갑상선관 기형에 관한 임상적 고찰. 한이인지 30 : 960~967, 1987
- 3) 김광현·백만기·이용식 외 : 갑상선관 잔유조직에서 발생한 유두상 선암 2례. 한이인지 31 : 862~868, 1988
- 4) Bhagavan BS, Rao DRG, Weinberg T : Carcinoma of thyroglossal duct cyst : case reports and a review of the literature. Surgery 67 : 281~292, 1970
- 5) Butler EG, Dickey JR, Shill OS et al : Carcinoma of the thyroglossal duct remnant. Laryngoscope 79 : 264~271, 1969
- 6) Choy FJ, Ward R, Richardson R : Carcinoma of the thyroglossal duct. Am J Surg 108 : 361~369 1964
- 7) LaRouere MJ, Drake AF, Baker SR et al : Evaluation of management of a carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst. Am J Otolaryngol 8 : 351~355, 1987
- 8) Livolsi VA, Perzin KH, Savetsky L : Carcinoma arising in median ectopic thyroid(including thyroglossal duct tissue). Cancer 34 : 1303~1315, 1974
- 9) Mussbaum M, Buchwald RP, Ribner A : Anaplastic carcinoma arising from median ectopic thyroid. Cancer 48 : 2724~2728, 1981
- 10) Nuttal FQ : Cystic metastasis from papillary adenocarcinoma of the thyroid with comments concerning carcinoma

associated with thyroglossal remnants.
Am J surgery 109 : 500~503, 1965

- 11) Page CP, Kemmeter WT, Haff RC et al : Thyroid carcinomas arising in thyroglossal ducts. Ann Surg 180 : 799~803, 1974
- 12) Stanley DG, Robison FW : Thyroid carcinoma in thyroglossal duct cysts. Am Surg 36 : 581~582, 1970
- 13) Trail ML, Zeringue GP, Chicola JP : Carcinoma in thyroglossal duct remnants. Laryngoscope 87 : 1685~1691, 1977
- 14) Weiss SD, Orlich CC : Primary papillary carcinoma of a thyroglossal duct cyst : report of a case and literature review. Br J Surg 78 : 87~89, 1991
- 15) Widstrom A, Magusson P, Hallberg O et al : Adenocarcinoma originating in the thyroglossal duct. Ann Otol 85 : 286~290, 1976