

## 갑상선관 낭종에서 발생한 유두상 선암 1례

부산대학교 의과대학 이비인후과학교실  
윤종근·노환중·왕수건

= Abstract =

### A Case of Papillary Adenocarcinoma Arising from Thyroglossal Duct Cyst

Jong-Geun Yoon, M.D., Hwan-Jung Roh, M.D., Soo-Geun Wang M.D.

*Department of Otolaryngology, College of Medicine,  
Pusan National University*

Thyroglossal duct cyst is the most common congenital neck cyst, which originating from the remnant of the thyroglossal duct. Carcinoma arising in the thyroglossal duct cyst is rare, occurring in less than 1% of thyroglossal duct cyst.

Among various types of carcinoma being found from thyroglossal duct cyst, papillary adenocarcinoma is the vast majority. Other histologic types have included squamous cell, follicular, mixed papillary and follicular carcinoma, malignant struma, epidermoid carcinoma and anaplastic carcinoma.

Like papillary adenocarcinoma in thyroid gland, papillary adenocarcinoma from thyroglossal duct cyst is slow growing tumor. Regional and distant metastasis is less frequent. Male to female ratio is 1 : 1.5. Surgery by the Sistrunk procedure is choice for non-metastatic disease. Prognosis is very excellent if tumor could be removed completely.

Authors have experienced a case of papillary adenocarcinoma from thyroglossal duct cyst and reported with literatures review.

KEY WORDS : Papillary adenocarcinoma · Thyroglossal duct cyst.

### 서 론

갑상선관 낭종은 가장 흔한 선천성 경부 낭종으로 혀의 맹공에서부터 갑상선에 이르는 전경부의 갑상선관 잔유조직에서 발생한다. 대부분의 경우 양성 경과를 취하여, 악성화 빈도는 매우 드물며 갑상선관 낭종의 약 1% 이하에서 발생한다.

갑상선관 낭종의 상피세포에서 발생한 악성

종양은 1915년 Uchermann에 의해 첫 보고 이래 115례 정도 보고되었으며<sup>10)</sup>, 대부분은 유두상 선암으로 임상적으로 양성 낭종과 매우 비슷하여 수술전에 진단하기는 매우 힘들고 서서히 증식하며 전이는 드물며 치료로 Sistrunk 술식에 따른 광범위 국소 절제술이 필요하며 예후는 좋으나 장기적 추적 관찰이 필요하다.

저자들은 최근 갑상선관 잔유 조직에서 일차적으로 발생한 유두상 선암 1례를 치험하였

기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

## 증 례

성 명 : 정○규(M/24)

주 소 : 3년전부터 생긴 전경부의 낭종성 종물

초진일 : 1990년 7월 10일

현병력 : 1990년초 상기도 감염후 전경부에 서서히 증대하는 무통성 낭종성 종물을 발견하고 1990년 7월 본인 이비인후과를 방문하여 갑상선관 낭종으로 진단받고 수술위해 입원하였으나 간기능장애(지방간)로 인하여 수술받지 못하고 퇴원함. 그후 정기적인 관찰 중 간기능이 회복되어 1993년 2월 17일 수술을 위해 재차 입원함.

과거력 : 특기사항 없음.

가족력 : 특기사항 없음.

이학적 검사 : 5×10cm 크기의 비교적 단단한 질감의 전경부 종물이 갑상선끝 직상부의 정중선에 위치하며, 연하시 상하로 이동하는 무통성의 가동성 종물이 촉지되었으며 그의 갑상선을 포함한 경부의 다른 이상 소견은 없었다.

임상 검사 소견 : 특기 사항 없음.

경부 초음파검사 : 전경부에 매우 큰 크기의 낭종(7.3cm×5.5cm)이 관찰되었으며, 낭종벽은 규칙적이고 부드러우며, 낭종의 아래부분에 강한 에코소견을 보임(Fig. 1-A). 그의 측경부 및 주갑상선에는 이상소견이 없었음.

갑상선 동위원소검사 : 주갑상선에는 특기사항이 없었다(Fig. 1-B).

세침흡인술 세포검사(1993. 2. 16) : Macrophage만 보였고, 염증 세포 및 악성 세포는 보이지 않았음.

수술소견 : 종괴의 중간 부위를 지나면서 skin crease와 평행하게 8cm의 수평 절개를 가하고 낭종을 노출시킨 후 설골 일부를 포함하여 낭종을 적출하고 Hemovac drain®을 장치 후 피부봉합을 시행하고 compression dressing후 수술 마침.(낭종의 크기는 5×8cm였고, 약 47cc의 다갈색의 액체가 나왔으며, 부분적

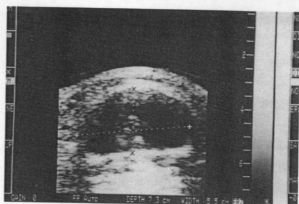


Fig. 1-A. Ultrasonography at the submental portion showing huge cystic mass with hyperechoic portion in the lower portion of mass.

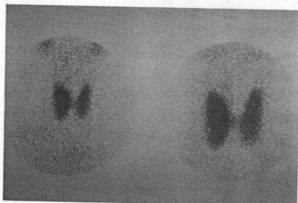


Fig. 1-B. <sup>99m</sup>Tc throid scan showing nonspecific abnormal finding.

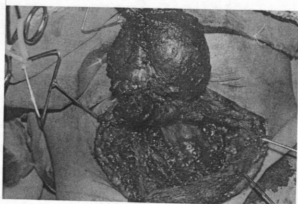


Fig. 2. The gross appearance of the huge cystic mass with hyoid bone in the operative field.

으로 단단한 부분도 있었음)(Fig. 2).

치료 및 경과 : 수술후 13일 후 퇴원하여 현재까지 정기적 관찰 중에 있으며 재발의 징후

는 없음.

병리학적 소견 : 육안적으로 검색된 조직은 무게 659g, 크기 7.5×5.5×4cm의 낭성 종괴로서, 설골 중앙부위에 부착되어 있었다. 종괴는 1개의 큰 낭성구조로 주로 구성되어 있었으며, 설골 주위에는 분리된 2개의 소낭도 함께 관찰되었다(Fig. 3-A). 단면 소견상 2×3×1cm 크기의 유두상 종양이 강내로 돌출되어 있었다(Fig. 3-B).

현미경적으로 낭종벽은 한 층 또는 여러 층의 편평상피로 피복되어 있었으며, 낭벽내에는 정상적인 비종양성 갑상선 조직이 관찰되었다(Fig. 4-A). 이러한 낭종벽에 인접하여 증식한 유두상 종양조직은 풍부한 중심성 혈관-섬유성 심지(fibrovascular cores)와 이들을 둘러싸고 있는 한층 혹은 중첩되어 있는 입방형 세포로 배열되어 있었다(Fig. 4-B). 이들 배열 세포에서는 특징적으로 그 핵은 둥글고 핵질은 적으며 핵막만 뚜렷하게 보이는 "orphan annie eye" 핵상을 보였으며, 또한 "intranuclear grooving"도 많이 관찰되었다. 세포질은 호산성이고 과립상으로 그 양은 상대적으로 적었다. 유두상 구조내 및 주위 공간내에서는 사소체(psammoma body)가 많이 관찰되었다(Fig. 4-C). 일부에서는 이러한 유두상 종양 조직이 많이 관찰되었다. 일부에서는 이러한 유두상 종양 조직이 주변 낭종벽내로 깊숙이 침범하고 있었다(Fig. 4-D).

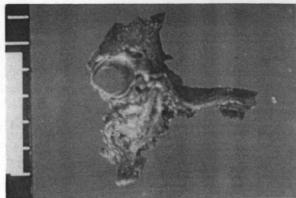


Fig. 3-B. The cyst contains papillary growing mass adjacent hyoid bone, measuring about 2.5×2cm in size.

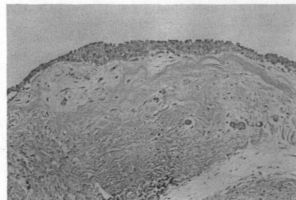


Fig. 4-A. Portions of the cyst wall are lined by benign stratified squamous epithelium.(HE stain, ×100).



Fig. 3-A. The gross appearance of the huge cystic mass(7.5×5.5×4cm)

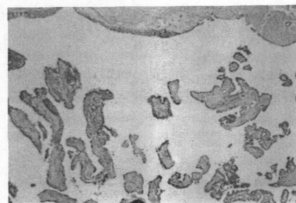


Fig. 4-B. Micrograph showing papillary carcinoma within a cystic space.(HE stain, ×40).

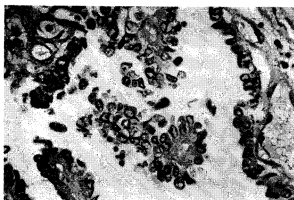


Fig. 4-C. Tumor cells characteristically showing "orphan eye" appearance and grooving of nuclei and scanty cytoplasm.(HE stain,  $\times 400$ ).



Fig. 4-D. Microphotograph showing invasion of papillary carcinoma into the cystic wall.(HE stain  $\times 40$ ).

## 고 찰

갑상선관은 발생학적으로 태생 4주에 갑상 기관이 혀의 맹공에서 시작하여 중심선을 따라 아래로 내려가는데 처음에 혀의 근육조직을 통과하고, 설골과 후두의 앞을 지나 갑상선 협부(thyroid isthmus)에서 끝난다. 그러므로 갑상선관 잔유조직에서 동반될 수 있는 변위 갑상선조직(ectopic thyroid tissue)도 설부, 설하부, 설골 상부 및 하부 등 어느 곳에서든지 발견될 수 있으나 설골하부에 흔하다<sup>12)</sup>.

조직학적으로 갑상선관 잔유조직은 갑상선관 내면 상피세포와 낭종의 벽에 갑상선 조직이 존재하며<sup>15)</sup>, 상피는 주로 중층 편평상피(st-

ratified squamous epithelium) 혹은 위중층성 모원주상피(pseudostratified ciliated columnar epithelium)로 되어있으며 드물게 이행상피(transitional epithelium), 입방상피(cuboidal epithelium)로 된 경우도 있다<sup>5)</sup>. 갑상선 조직이 갑상선관 낭종에서 발견율은 1%에서 62%까지 다양하게 보고되고 있으며<sup>16)</sup> 김 등<sup>12)</sup>은 이는 표본의 절편을 얼마나 많이 조사하였는가에 따라 달라진다고 하였다.

갑상선관 잔유조직의 상피세포로부터 일차적으로 발생하는 악성 종양은 매우 드물며, 병리 조직학적으로는 유두상 선암(papillary adenocarcinoma)이 전체의 75~85%를 차지하며 그의 여포상 선암(follicular adenocarcinoma), 유두상과 여포상의 혼합형(mixed type), 편평상피암(squamous cell carcinoma), 퇴행선암(anaplastic carcinoma) 등의 순이다<sup>1,3,5,13,16)</sup>.

갑상선관 낭종에서 발생한 유두상 선암의 발생원인은 정상 갑상선 조직의 변위소(ectopic rest)내에서 악성 변성이 일어난 것으로 여겨지며, 주갑상선 원발 병소의 발견없이 임파절 전이로 나타날 수 있다<sup>8)</sup>. Hays 등<sup>9)</sup>은 방사선으로 인한 갑상선관 낭종의 유두상 선암의 발생 보고는 없었다고 하였으나 Aldrich<sup>9)</sup>는 갑상선 유두상 선암을 가진 15세 이하의 어린이를 대상으로 조사한 결과 부비동 질환, 흉선비대, 여드름, 비인두의 임파선 증식 등으로 인해 두경부에 소량의 방사선 치료를 받은 경우에 잘 생기는 것으로 보아 방사선과 그 발생 원인에 관계가 있다고 보고하였다.

갑상선관 낭종에서 발생한 유두상 선암은 약 1:1.5로 여자에서 약간 높게 발생하고 연령 분포는 갑상선에 발생하는 유두상 선암과는 달리 6세에서 75세까지로 어느 나이에서나 발생할 수 있다<sup>8)</sup>. 크기는 다양하나 악성화는 무관하며<sup>2,17,11,10,16)</sup> 종몰이 발견될 때까지 소요되는 시간은 10일에서 40년까지 다양하며 평균 4.7년이나<sup>10)</sup> 양성과 악성을 감별 진단하는 데 도움을 주지 못한다<sup>18)</sup>. 가장 흔한 증상은 전경부의 촉진할 수 있는 종몰로서 양성 낭종과 같이 동통이 없고 급속히 자라지 않는다<sup>11)</sup>. 대부분의 경우 특이한 증상의 동반은 없으나 드물게 연

하관란, 동통, 애성, 체중감소, 농분비 등을 동반하기도 한다<sup>2)</sup>. 특히 고령자에서 최근에 발생한 정중부 경부 종물이 인지된 경우 주의깊게 관찰하여야 한다<sup>15)</sup>.

갑상선관 악성 종양이 낭종의 상피세포로부터 일차적으로 발생하였는지 주갑상선으로부터 전이되었는지는 중요한 문제로 Nuttall<sup>14)</sup>과 Judd 등<sup>11)</sup>은 정중부 경부 낭종의 유두상 선암은 임상적으로는 갑상선에서 발견되지 않은 유두상 선암이 이차적으로 전이된 결과라고 주장하였고 Crile<sup>7)</sup>은 갑상선관은 주갑상선암의 전이를 위한 자연적인 연결관이라 주장하였다. 한편 갑상선관 낭종에서 악성 종양과 연관된 정상 갑상선 조직의 발견은 악성 종양이 갑상선관 낭종에서 일차적으로 발생하였다는 것을 암시한다<sup>17)</sup>.

갑상선관 낭종에서 발생한 유두상 선암과 임파절 전이를 감별하는 것은 매우 중요하며, 임상적으로 갑상선으로부터 임파절 전이는 부드럽고 얇은 벽을 가진 낭종으로 갑상선관 낭종이 있는 정중부나 생성기원 낭종이 위치하지 않는 부위에도 발생할 수 있어 낭종벽을 조심스럽게 관찰해야 한다<sup>8)</sup>. Livolsi 등<sup>10)</sup>은 정중부 경부의 낭종에는 두가지 종류가 있으며 조직학적 검사상 변위 갑상선 조직이나 갑상선관 낭종의 증거가 없는 낭종형 유두상 선암(cystic papillary adenocarcinoma)인 경우와 갑상선관 낭종의 변위 갑상선 조직에서 유두상 선암이 발견되는 경우라고 하였다<sup>10)</sup>. 전자의 경우에는 주갑상선 조직에서 전이가 일어났을 가능성이 높은 반면 후자의 경우에는 실제 변위 갑상선 조직에서 일차적으로 생긴 악성 종양으로 믿어진다. Weiss와 Orlich<sup>17)</sup>은 갑상선관 낭종에서 발생한 악성 종양으로 보고된 115례중 갑상선적출술(thyroidectomy)를 시행한 33례와 부검시 갑상선 조직검사를 시행한 2례를 합친 35례중 오직 4례에서 주갑상선에서 악성 종양을 현미경적으로 확인하였다. 이 4례 모두 임상적으로는 정상 갑상선 소견을 보였으며 그외의 31례에서는 갑상선에서 악성 종양 소견을 발견할 수 없었다고 하였다.

갑상선관 낭종에서 발생한 유두상 선암의

진단은 양성 낭종과 비슷하여 수술 전에 진단하기는 매우 어렵고<sup>8)</sup> 수술후 현미경하의 조직 검사에 의해서만 이루어지나 임상적으로는 갑상선관 낭종이 단단하고 고정되어 있으며 최근 크기의 변화를 보였거나 특히 경부 임파절이 축지될 때는 악성을 의심해야 하며<sup>17)</sup>, 세침흡인술(fine needle aspiration)을 시행하여 세포병리 검사를 시행함은 의미가 있다<sup>18)</sup>. 그리고 수술전에 갑상선 동위원소촬영 및 갑상선기능 검사 등을 시행함으로써 예기치 못한 주갑상선 내외의 병변이나 변위 갑상선 조직, 국소적 혹은 전신적 종양의 전이를 발견할 수 있다<sup>8)</sup>.

갑상선관 낭종에서 일차적으로 발생한 유두상 선암의 병리학적 진단 기준은 어렵고 잘 정립되어 있지 않으나<sup>15)</sup> Widström 등<sup>16)</sup>은 첫째 압조직이 분명한 갑상선관 잔유조직이나 혀의 맹공에서 설골을 지나 전경부에 이르기까지의 경로에 국한되어 있어야 하고 둘째로 주갑상선의 병리조직학적 검사상 압조직이 없어야 한다고 주장하였다. 과거에는 갑상선 유두상 선암이 전경부로 전이된 것을 제외하기 위해서는 갑상선 전적출술이 요구되었지만<sup>15)</sup> Rose 등<sup>19)</sup>은 갑상선 적출술을 받지 않은 환자에서 갑상선관 낭종에서 일차적으로 발생하였는가의 증거를 첫째로 정상 갑상선 조직과 상피로 된 갑상선관의 존재에 대한 충분한 조직학적 증거가 있으며, 둘째로 압종이 낭종벽내의 정상 갑상선 조직내에 혼합되어 있으며 셋째 유두상 선암은 다중심성 암(multifocal carcinoma)으로 만약 갑상선 절제술을 시행하여 유두상 선암이 발견되더라도 낭종벽내에서도 압종이 발견되면 갑상선관에서 일차적으로 발생한 것으로 추정해야 한다고 주장하였다. 본례의 경우 이런 조직학적 소견에 따라 갑상선관에서 일차적으로 발생한 유두상 선암으로 사료되었다.

갑상선관암의 유두상 선암의 치료는 비전이성 절환일 경우 Sistrunk 술식에 따른 광범위 국소 절제술이 추천된다<sup>17)</sup>. 갑상선 절제술은 갑상선에 동위원소 검사상 cold nodule이나 축지된 종물이 있거나, 방사선 조사의 과거력 등 명확한 종물의 증거가 있을때만 추천되며<sup>18)</sup>,

입파절 전이가 있는 경우에는 갑상선적출술 및 경부곽청술이 시행되어야 한다<sup>8)</sup>. 앞에서 언급한 갑상선관암 환자의 조직 검사에서 보듯이 갑상선관암 환자에서 예방적 성격을 띤 갑상선 전적출술은 별 의미가 없을 것으로 생각된다<sup>2,12)</sup>. 대개의 갑상선관암은 비교적 서서히 커지며 오랜 기간 경부에 국한되어 있다. 그러므로 경부임파조직으로의 전이는 정기적인 관찰로 발견, 치료될 수 있다<sup>2)</sup>. 수술후에는 갑상선 호르몬분비를 적게하기 위한 갑상선 호르몬제의 투여나 방사선 동위원소 I<sup>131</sup> 등이 적절히 사용되어야 한다<sup>2)</sup>. 갑상선의 양성 종양과 마찬가지로 20년 또는 그 이상의 장기간의 경과를 취하므로<sup>17)</sup>, 지속적인 추적 관찰이 필요하다<sup>9)</sup>. 예후는 갑상선에 발생한 유두상선암과 비슷하며 매우 양호한 것으로 알려져 있다<sup>12,18)</sup>. Hays 등<sup>8)</sup>은 피막의 관통이나 수술중 낭성 내용물의 파열이 없다면 예후는 매우 좋다고 하였다.

## 요 약

저자들은 24세 남자의 갑상선관 낭종의 잔유조직에서 병발한 유두상 선암을 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## References

- 1) 강병길·유항희·정덕희 외 : 갑상선관 낭종의 임상적 고찰. 한이인지 19(14) : 95~99, 1976
- 2) 김용일·김광현·백만기 외 : 갑상선관 잔유조직에서 발생한 유두상 선암 2례. 한이인지 31 : 862~868, 1988
- 3) 김소연·이영희·배홍갑 외 : 갑상선관 잔유조직에서 발생한 유두상 선암 1례. 한이인지 33(2) : 402~406, 1990
- 4) Aldrich ME : Carcinoma of the thyroid, charlottessville. Va Am J Surg 109 : 736~742, 1965

- 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 thyroglossal duct. Am J Surg 108 : 361~369, 1964
- 7) Crile G Jr. : Papillary carcinoma of the thyroid and lateral cervical region : so called 'lateral aberrant thyroid'. Surg Gynecol Obster 85 : 757~66, 1947
- 8) Hays LL, Marlowe JF : Papillary adenocarcinoma arising in a thyroglossal duct cyst. Laryngoscope 78 : 2189~2203, 1967
- 9) Jaques DA, Chambers RG, Oertel JE : Thyroglossal tract carcinoma, Am J Surg 120 : 439~446, 1970
- 10) Joseph TJ, Komorowski RA : Thyroglossal duct carcinoma. Hum Patho 16 : 717~729, 1975
- 11) Judd ES. : Thyroglossal duct cysts and sinuses. Surg Clin North Am., 43 : 1023~1032, 1963
- 12) Livolsi VA, Perzin KH, Savetsky L : Carcinoma arising in median ectopic thyroid(including thyroglossal duct tissue). Cancer 34 : 1303~1315, 1974
- 13) Nussbaum M, Buchwald RP, Ribner A : Anaplastic carcinoma arising from median ectopic thyroid(Thyroglossal duct remnant). Cancer 48 : 2724~2728, 1981
- 14) Nuttall FQ : Cystic metastasis from papillary adenocarcinoma of the thyroid with comments concerning carcinoma associated with thyroglossal remnants. Am J Surg 109 : 500~503, 1965
- 15) Rose DF, Snively SL, Phelps RG et al : Carcinoma of the thyroglossal duct. Am J Surg 145 : 266~269, 1983
- 16) Trail ML, Zeringue GP, Chicola JP : Carcinoma in thyroglossal duct remnants. Laryngoscope 87 : 1685~1691, 1977

- 17) 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
- 18) Widström A, Magusson P, Hallberg O, et al : Adenocarcinoma originating in the thyroglossal duct. Ann Otol 85 : 286~290, 1976