

# A Case of Mediastinal Ectopic Thyroid Cyst Inducing Severe Airway Compression

Young Hwan Kim, Hyun Ju Han, Dongsik Jung, and Jeong Hwan Moon

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Dankook University College of Medicine, Cheonan, Korea

## 기도 압박을 유발한 종격동 이소성 갑상선 낭종 1예

김영환 · 한현주 · 정동식 · 문정환

단국대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

**Received** August 24, 2016

**Revised** September 27, 2016

**Accepted** September 28, 2016

**Address for correspondence**

Jeong Hwan Moon, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-

Head and Neck Surgery,

Dankook University

College of Medicine,

201 Manghyang-ro, Dongnam-gu,

Cheonan 31116, Korea

**Tel** +82-41-550-3974

**Fax** +82-41-556-1090

**E-mail** drmjh7979@naver.com

Ectopic thyroid gland is usually located along the development path of thyroid in the anterior midline of the neck. However, its occurrence within the mediastinum is very rare. Mediastinal ectopic thyroid cyst is usually benign and asymptomatic, but we experienced a case of the mediastinal ectopic thyroid cyst inducing a severe airway obstruction in a 45-year-old male. The mass had no connection to the cervical thyroid gland and histological examination revealed a mediastinal cyst of an ectopic thyroid. We present the case with a review of the related literatures.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2016;59(12):860-4

**Key Words** Airway obstruction · Cysts · Mediastinum · Thyroid.

## 서 론

갑상선(thyroid gland)은 태생 3주에서 7주 사이에 설근부의 맹공(foramen cecum)에서 전경부를 따라 하강하여 정상 위치에 존재하게 된다. 이소성 갑상선(ectopic thyroid gland)은 퇴화되지 않은 갑상선의 잔여물에서 발생한다. 대부분 설근부에 발생하며 기관지, 악하선, 경동맥 분지, 뇌하수체 등에서 발견되기도 한다.<sup>1)</sup> 이 중 종격동(mediastinum)에 발생하는 예는 전체 이소성 갑상선의 1% 미만이며<sup>2)</sup> 환자는 증상 없이 지내던 중 우연히 발견되는 경우가 많다.<sup>3)</sup> 저자들은 종격동 이소성 갑상선 낭종이 기도 압박 및 호흡곤란을 유발한 응급 상황에서 초음파 및 세침흡입술로 증상을 완화시키고 이어 수술적 치료를 시행한 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증 례

45세 남자 환자가 하루 전 갑자기 발생한 호흡곤란을 주소로 외부 병원 응급실 진료 후 본원 응급실로 진료 의뢰되었다. 환자는 2년 전 점진적으로 진행되는 경부 이물감으로 외부 병원에서 갑상선 초음파 및 세침흡입술을 시행한 병력이 있으며 당시 양측 갑상선에 양성 종물이 있다는 말을 듣고 별다른 치료 없이 지내고 있었다. 호흡곤란이 발생하면서 갑자기 우측 경부가 붓기 시작하였다고 하였으나 외상 및 방사선 조사에 대한 병력은 없었으며 그외 과거력과 가족력 상 특이사항은 없었다.

내원 당시 이학적 검진 상 우측 전경부에 둥글고 압통이 없는 단일성 종괴가 촉진되었다. 발열, 피부의 발적 등 감염을 의심할 만한 소견은 없었으며 임파선 종대 및 다른 이상은 발견되지 않았다. 외부 병원에서 시행한 경부 컴퓨터단층촬영에서 우측 갑상선엽과 분리된 4.9×4.1×3.6 cm 크기의 경계가

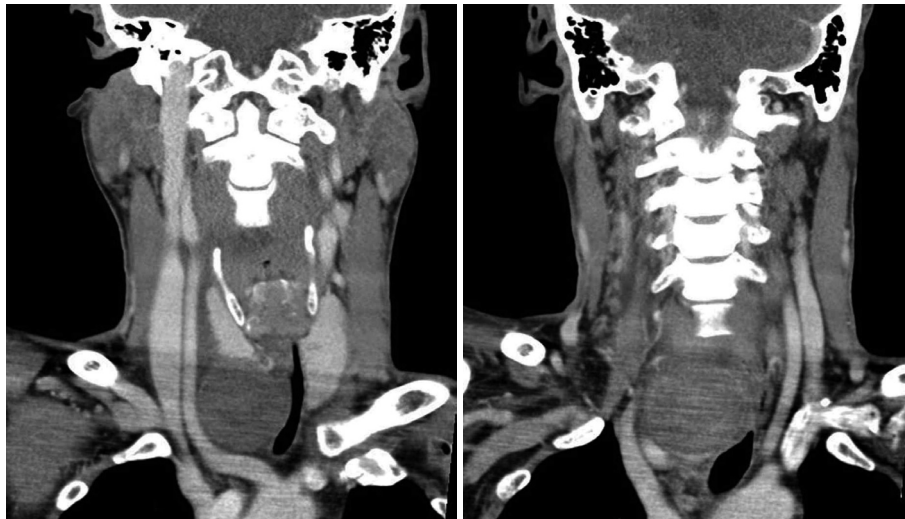
분명한 저음영 종괴가 흉골 하방에서 기관을 좌측으로 편위시키고 있었다(Fig. 1). 또한 양측 갑상선의 결절이 발견되었으나 환자의 증상과 연관이 없는 것으로 생각되었다. 혈중 이산화탄소 분압의 및 산소 분압의 확인을 위해 동맥 혈액가스 검사를 시행하였으며 다른 수치는 정상이었으나 과호흡으로 인해 혈중 산소 분압이 상승되어 있었다. 후두 내시경 검사에서 양측 성대의 움직임은 정상이었으며 호흡곤란을 유발할 만한 이상 소견은 확인되지 않았다.

이에 응급으로 경부 초음파를 시행하여 중격동 내부의 낭종성 종괴에서 황갈색 장액성 액체를 18 cc 흡인하였다. 환자는 세침흡입 시행 후 호흡곤란 및 이물감이 호전되었으며 출혈 및 호흡곤란의 재발을 방지하기 위해 입원하여 경과 관찰 4 일 후 퇴원하였다. 외래 추적 관찰 중 종괴가 다시 커지는 양상을 보여 우측 갑상선엽 절제술 및 중격동 낭종 절제술을 계획하고 컴퓨터단층촬영 및 갑상선 기능 검사를 시행하였다.

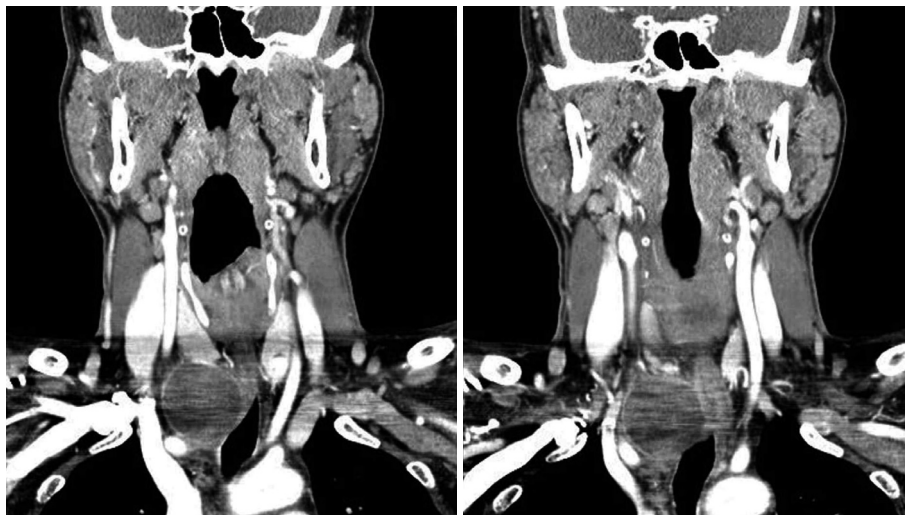
재시행한 전산화단층촬영 상 이전 영상에서 확인하였던 것과 같은 위치에  $4.2 \times 3.9 \times 3.2$  cm 크기의 낭종성 종괴가 확인되었다(Fig. 2). 술 전 시행한 갑상선 기능 검사는 모두 정상 범위였다.

전신마취 하에 시야 확보 및 우측 갑상선 결절의 제거를 위한 우측 갑상선엽 절제술을 시행하였다. 육안 상 우측 반회신경 및 부갑상선은 정상이었으며 갑상선과 박리하여 보존하였다. 우측 갑상선엽 제거 후 흉골 하방으로 갑상선 실질과 분리되어 있는 갈색의 등근 낭종성 종괴를 확인하였다. 종괴는 얇은 피막으로 싸여 쉽게 박리되었다. 종괴를 견인하여 피막의 일부가 남지 않도록 주의하여 일괄적으로 적출하였으며 종괴에서 20 cc가량의 갈색 장액성 액체가 흡입되었다(Fig. 3). 이후 출혈 유무를 확인하고 수술을 종료하였다.

병리조직 소견 상 결절성 과증식을 동반한 갑상선 조직 유래의 낭종으로 진단되었으며, 이와 별개의 병변으로 우측 갑

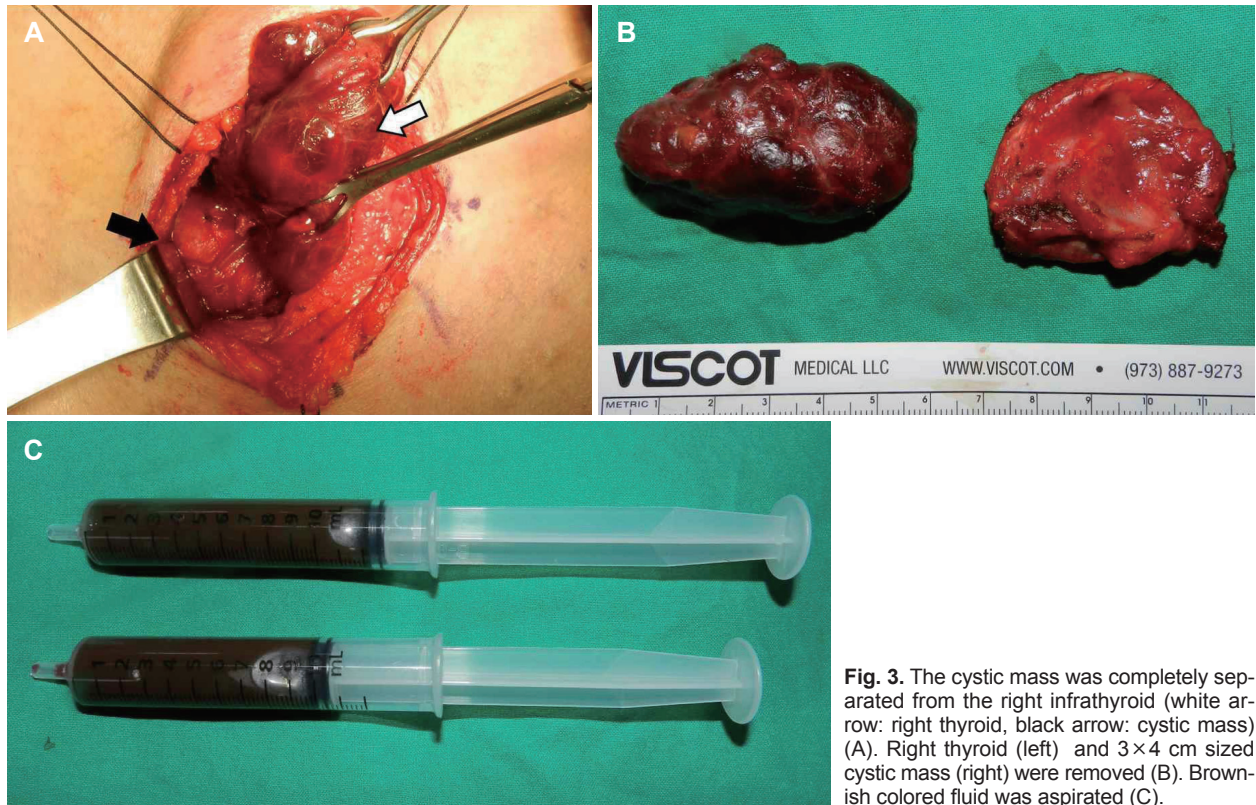


**Fig. 1.** Outside CT scan showed a  $4.9 \times 4.1 \times 3.6$  cm non-enhancing low density mass lesion in the mediastinum. The trachea was deviated and severely compressed by the mass.



**Fig. 2.** Preoperative CT scan after fine needle aspiration.  $4.2 \times 3.9 \times 3.2$  cm cystic mass in right infrathyroid area.





**Fig. 3.** The cystic mass was completely separated from the right infrathyroid (white arrow: right thyroid, black arrow: cystic mass) (A). Right thyroid (left) and 3×4 cm sized cystic mass (right) were removed (B). Brownish colored fluid was aspirated (C).

상선 내 국한된 0.3 cm 크기의 미세유두상암종이 발견되었다. 흡입된 액체에서 조직학적 검사 및 부갑상선 호르몬 검사를 시행하였으나 액체 내 세포 조직이 없고 점도가 높아 검사를 시행하지 못했다.

수술 3일 후 후두 내시경 검사 상 양측 성대의 움직임은 정상이었으며, 환자는 다른 합병증 없이 수술 5일 후 퇴원하였다. 수술 후 3개월 동안 재발 및 다른 이상 소견은 보이지 않았으며 좌측 갑상선 내에 존재하는 미세 갑상선 결절에 대해서는 추가적으로 세침흡인 세포 검사 및 수술적 치료를 권유하였으나 환자는 크기가 커지면 수술받기를 위하여 현재 초음파 검사를 통해 추적 관찰을 하고 있다.

## 고 찰

종격동은 양측의 종격동 흉막 사이에 있는 흉곽 중앙부로서 상방은 흉곽 입구, 하방은 횡격막으로 구분되며 여러 기관과 조직이 밀집되어 있어 다양한 종류의 신생물이 병발할 수 있다. 종격동 내 낭종성 병변은 원발성 종격동 종양의 12~18%를 차지하며<sup>4)</sup> 크기가 큰 경우 주변 조직을 압박하여 증상을 유발할 수 있으나 대부분 무증상으로 영상학적 검사에서 우연히 발견된다. 종격동 낭성 병변은 양성과 악성 모두에서 발생할 수 있어 이에 대한 감별이 필요하다. 전종격동의 낭성

병변은 흉선이나 심낭 조직 기원인 경우가 흔하며 중, 후종격동의 병변은 대부분 호흡기계나 소화기계에서 기원한다. 갑상선 기원의 종격동 낭성 병변은 드문 질환으로 전종격동 내 병변이 대혈관 후방으로 이동한 경우보다 자주 발견되고<sup>5)</sup> 흉선종, 림프절 증식증, 흉선 증식증, 흉선암종 등 종격동의 다른 질환들과 감별되어야 한다. 본 증례에서도 병변의 위치 상 병리학적 진단 전까지 흉선 기원의 낭종을 의심하였다. 세침흡인액의 색이 맑고 투명한 경우 흡인액에서 부갑상선 호르몬 수치를 측정하여 부갑상선 낭종을 감별할 수 있으나 본 사례에서 시행한 세침흡인액은 황갈색으로 이에 해당하지 않았으며 세포 검사 상 점도가 높아 부적절한 검체로 결과를 확인할 수 없었다.

이소성 갑상선은 갑상선이 2번째와 4번째 기관 연골 사이 전경부의 정상 위치에 존재하지 않는 경우로 원인은 태생기 발달 과정 중 갑상선관이 퇴화하는 과정에서 이상으로 인해 생기게 된다. 이소성 갑상선의 발생빈도는 인구 100000~300000명 중 1명의 비율로 드물게 발생하며, 여자에서 남자보다 4배 정도 많이 발생한다.<sup>6)</sup> 설근부 부위에서 가장 흔하며 기관지, 악하선, 경동맥 분지, 뇌하수체에서 발견되기도 하고 드물게 종격동, 심낭이나 식도에 발생하기도 한다. 태생기 때 갑상선관이 정상 위치보다 더 아래로 하강한 후 퇴화되지 않고 잔존한 경우 종격동 내 이소성 갑상선이 발생하게 된다.<sup>1)</sup> 대부

분 경부의 정상 갑상선과 연결이 되어 있으며<sup>3)</sup> 갑상선 기능은 정상이거나 저하된 경우가 모두 보고되고 있다.<sup>7)</sup> 본 증례에서 수술 중 이소성 갑상선 낭종이 우측 갑상선 하부의 실질 조직과 분명하게 분리되어 있는 것을 확인하였으며 수술 전 시행한 갑상선 기능 검사에서 갑상선 기능은 정상이었다.

갑상선 종양에 의한 기관 압박은 오랜 시간에 걸쳐 진행되며 환자는 좁아진 기도에 적응하므로 증상이 없는 것이 대부분이다. 급격하게 크기가 증가한 전경부의 종괴로 환자가 외래 및 응급실로 내원하는 경우 동맥류, 동정맥루 등 혈관성 종양이나 출혈성 병변, 전이성 및 염증성 림프절 등을 감별해야 한다.<sup>6)</sup> 악성 종양을 포함한 갑상선 질환에 의한 급성 기도 압박은 2~18%에서 발생할 수 있다고 보고되어 있다.<sup>8)</sup> 그러나 양성 종양에서는 비교적 드문 증상으로 1% 정도 발생하며 대개 다결절성 갑상선선종(multinodular goiter)이 원인으로 알려져 있다.<sup>9)</sup> 국내에서는 갑상선 종양 환자에서 급성 기도 압박이 발생하는 원인으로 종양 내 출혈이 여러 차례 보고되고 있으며<sup>10)</sup> 갑상선 억제요법 중 양성 갑상선 낭종 내 출혈에 의한 상기도 폐쇄에 대한 증례가 보고된 바 있다.<sup>11)</sup> 그러나 본 증례에서 환자는 내원 2일 전까지 경부 이물감 외 다른 증상이 없었으며 2년 전 시행한 갑상선 초음파 및 세침검사 외 갑상선에 대한 치료 및 검사를 시행받은 병력이 없었다. 갑상선엽 내 0.3 cm의 유두상암종이 진단되었으나 낭종은 정상 갑상선 조직과 완전히 분리되어 있었으며 조직 검사 결과 갑상선 조직의 낭종성 변성 및 결절성 과증식 소견을 제외한 악성 소견은 확인되지 않았다. 본 증례는 경계가 분명한 저음영 종괴로 초음파 상에서 내부가 균질한 낭종으로 확인되어 악성을 의심하지 않았으나 점차 크기가 커지면서 호흡곤란의 재발 가능성이 있어 수술적 치료를 시행하였다. 이소성 갑상선 결절성 과증식증은 병리학적 양성으로 반드시 제거가 필요한 질환이 아니나 내부의 괴사 및 출혈 소견이 의심되는 비균질적인 종괴로 발견된 사례 또한 보고되어 있으며 이러한 경우 절제 및 조직 생검을 시행하기 전까지 악성 종양과 감별이 어려울 수 있다.<sup>12)</sup>

이소성 갑상선은 흉부 단순 방사선 촬영만으로는 감별할 수가 없다. 갑상선 조직은 요오드 성분을 포함하고 있어 조영증강 컴퓨터단층촬영에서 강하고 지속적인 조영증강을 보인다. 그리고 비조영증강 컴퓨터단층촬영에서도 고밀도로 보이기 때문에 임파선으로 오인되는 경우는 별로 없다.<sup>13)</sup> 본 증례에서는 양성 병변으로 컴퓨터단층촬영에서 갑상선 조직을 감별하기는 어려웠다.

요오드 스캔은 이소성 갑상선과 다른 종격동 종양을 감별하는 데 유용하며, 요오드 스캔에서 양성을 보이는 경우, 이소성 갑상선을 의심할 수 있다. 그러나 모든 이소성 갑상선에

서 요오드 스캔 양성 반응을 보이지는 않으므로 요오드 스캔은 임상적으로 이소성 갑상선이 가장 의심될 경우에만 진단적인 검사로 고려할 수 있다.<sup>14)</sup>

갑상선 종괴로 인한 기도 압박으로 환자가 급격한 호흡곤란을 호소하거나 청색증 등 이학적 이상 소견을 보일 경우 방사선학적으로 기도 압박이 심하지 않아도 응급으로 기관절개술 및 삽관술을 통해 기도를 확보해야 한다.<sup>9)</sup> 종양 내 혈종이나 낭종성 종괴의 경우 세침 흡입술을 시도하여 낭종의 부피를 줄이고 증상을 완화시킬 수 있다.<sup>10,11)</sup> 본 증례에서도 초음파를 통해 종괴의 위치를 파악하고 액체를 흡입하여 기도를 확보하고 빠르게 증상을 호전시킬 수 있었다. 그러나 진단되지 않은 경부 종물이나 초음파 및 영상의학적 가이드가 없는 경우 세침흡입술은 시술 후 출혈을 포함한 다른 합병증을 유발할 수 있다. 출혈성 병변은 초기에 경미한 기도 폐쇄가 보이더라도 급격히 진행할 수 있으므로 적극적인 기도 확보가 매우 중요하다.<sup>15)</sup>

본 증례에서는 종격동 이소성 갑상선 낭종이 호흡곤란을 유발한 사례를 보고하였다. 적절한 경우 낭종성 종괴가 기도 폐쇄를 일으키기 전 경부 초음파 및 세침흡입술을 시행하여 증상을 완화시키고 환자의 안전과 시간을 확보할 수 있다. 또한 임상적으로 종격동 내 종괴가 발견된다면 갑상선 기능 검사를 포함한 검사를 시행하여 이소성 갑상선에 대한 감별이 필요할 것으로 생각된다.

## REFERENCES

- 1) Ibrahim NA, Fadeyibi IO. Ectopic thyroid: etiology, pathology and management. *Hormones* (Athens) 2011;10(4):261-9.
- 2) Hazarika P, Siddiqui SA, Pujary K, Shah P, Nayak DR, Balakrishnan R. Dual ectopic thyroid: a report of two cases. *J Laryngol Otol* 1998; 112(4):393-5.
- 3) Gamblin TC, Jennings GR, Christie DB 3rd, Thompson WM Jr, Dalton ML. Ectopic thyroid. *Ann Thorac Surg* 2003;75(6):1952-3.
- 4) Takeda S, Miyoshi S, Minami M, Ohta M, Masaoka A, Matsuda H. Clinical spectrum of mediastinal cysts. *Chest* 2003;124(1):125-32.
- 5) Zambudio AR, Lanzas JT, Calvo MJ, Fernández PJ, Paricio PP. Non-neoplastic mediastinal cysts. *Eur J Cardiothorac Surg* 2002;22(5): 712-6.
- 6) Leung AK, Wong AL, Robson WL. Ectopic thyroid gland simulating a thyroglossal duct cyst: a case report. *Can J Surg* 1995;38(1):87-9.
- 7) Yoon JS, Won KC, Cho IH, Lee JT, Lee HW. Clinical characteristics of ectopic thyroid in Korea. *Thyroid* 2007;17(11):1117-21.
- 8) Shaha AR, Burnett C, Alfonso A, Jaffe BM. Goiters and airway problems. *Am J Surg* 1989;158(4):378-80; discussion 380-1.
- 9) Kadhim AL, Sheahan P, Timon C. Management of life-threatening airway obstruction caused by benign thyroid disease. *J Laryngol Otol* 2006;120(12):1038-41.
- 10) Park BJ, Kim BW, Lee JH, Lee JS. A case of acute airway obstruction due to intracystic hemorrhage of thyroid papillary cancer. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2004;47(7):675-8.
- 11) Koh YW, Lee SW, Kim HJ, Lee JY. Two cases of benign thyroid tumor inducing acute upper airway distress. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2006;49(7):751-4.

- 12) Park CM, Ahn DB, Park JY, Park JS. Ectopic thyroid nodular hyperplasia misdiagnosed as an anterior mediastinal malignant mass: a case report. *J Clinical Otolaryngol* 2010;21(2):288-92.
- 13) Lau S, Yeung WH, Kwan WH, Cheng CS, Lam HS. Computed tomography of anterior mediastinal masses. *J HK Coll Radiol* 2003; 6:100-6.
- 14) Abdel Aal M, Scheer F, Andresen R. Ectopic mediastinal thyroid tissue with a normally located thyroid gland. *Iran J Radiol* 2015; 12(1):e7054.
- 15) Chin KW, Sercarz JA, Wang MB, Andrews R. Spontaneous cervical hemorrhage with near-complete airway obstruction. *Head Neck* 1998;20(4):350-3.