



A Case of Laryngotracheal Reconstruction With Radial Forearm Free Flap in Patient With Thyroid Squamous Cell Carcinoma

Jae-Hoon Jung^{ID}, Ju-Eun Lee^{ID}, So-Hyun Kim^{ID}, and Young-Hoon Joo^{ID}

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, College of Medicine, The Catholic University of Korea, Seoul, Korea

갑상선 편평상피세포암종 환자에서 요전완유리피판을 이용한 후두기관재건술 1예

정재훈 · 이주은 · 김소현 · 주영훈

가톨릭대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

Received June 16, 2022

Revised July 21, 2022

Accepted August 1, 2022

Address for correspondence

Young-Hoon Joo, MD
Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,
Bucheon St. Mary's Hospital,
College of Medicine,
The Catholic University of Korea,
327 Sosa-ro, Bucheon 14647, Korea
Tel +82-32-340-7090
Fax +82-32-340-2674
E-mail joodoct@catholic.ac.kr

Primary squamous cell carcinomas arising from the thyroid is an extremely rare malignancy, which clinically can invade the larynx and trachea. In such an event, thyroidectomy with en bloc resection and reconstruction is the treatment of choice. However, laryngotracheal reconstruction remains a challenge and no ideal reconstruction has yet been established. Herein, we report a case of a thyroid squamous cell carcinoma invading the laryngotrachea. The tumor was completely resected surgically, including the laryngotrachea wall, which was reconstructed with a radial forearm free flap. The patient was decannulated one year after surgery and no evidence of disease was detected two years after surgery.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2023;66(3):198-202

Keywords Free flap; Reconstructive surgical procedure; Squamous cell carcinoma; Thyroid cancer; Tracheal neoplasm.

서론

갑상선기원 편평상피세포암종은 희귀한 악성질환으로 전체 갑상선 악성종양의 1% 가량을 차지하며 예후도 좋지 않아 대부분의 환자가 진단 1년 이내 사망한다.¹⁻⁴⁾ 또한 원격전이보다는 국소적으로 공격적인 성향을 가지고 있다.³⁾ 기관은 해부학적으로 갑상선 뒤에 인접하여 위치해있기 때문에 갑상선 암에 의해 많은 영향을 받는 부위이며 피대근과 반회신경 다음으로 많은 침윤이 일어나는 기관이다.^{5,6)} 기관지 침범 소견이 있는 경우 치료법으로 기관 절제술을 시행할 수 있다.⁷⁾ 기관 절제술로 인해 기관에 큰 결손이 발생했을 경우 재건술이 필요한데 현재 어떤 재료가 기관 재건에 가장 유용한지에 관해

서는 논란이 있다.⁸⁾ 여러 문헌에 따르면 국소피판, 대흉근과 늑연골, 설골하근, 광배근, 전외측대퇴피판등 다양한 재료가 시도되고 있다.⁶⁾ 저자들은 최근 갑상선에서 기원하여 기관을 침범한 편평상피세포암종을 갑상선부분절제술 및 후두기관 부분절제술을 사용하여 완전 제거하고 요전완유리피판을 사용하여 기관을 성공적으로 재건한 1예를 경험하였고, 기존 문헌 고찰과 함께 본 증례를 보고하는 바이다.

증례

55세 여자 환자가 내원 1주전 발생한 음성변화를 주소로 외래에 방문하였다. 이외에 다른 자각 증상은 없었다. 후두내시경상 우측 성대마비 소견이 확인되었고 경부 CT에서 갑상선 우엽 부위에서 3.5 cm 크기의 경계가 일부 불분명하며 저음영을 보이는 종괴가 확인되었다(Fig. 1). 종괴는 갑상선을

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.

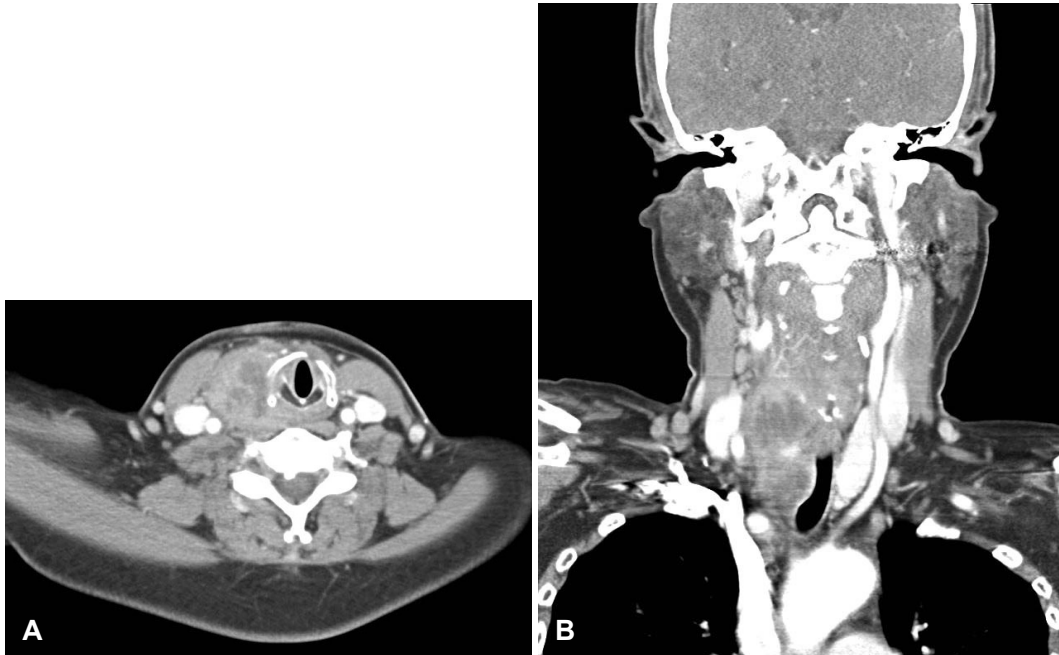


Fig. 1. Preoperative neck CT images of patient revealed 3.5 cm low attenuated mass compressing airway in the right thyroid gland. A: Axial image. B: Coronal image.

벗어나 갑상선연골을 침식하고 기관을 압박하는 양상을 보였고 갑상선 우측 및 기관주위공간에서 2개의 림프절 종대소견도 확인되었다. 병리학적 진단을 위해 초음파 유도 세침흡인생검(fine needle aspiration cytology, FNAC)을 시행하였다. 초음파상 갑상선 우엽 부위에서 32×40×32 mm 크기의 K-TIRADS 5 종괴가 확인되었으며, 경부 우측 level VI에서 20×20×23 mm 크기의 림프절 종대, 경부 우측 level II에서 13×19 mm 크기의 림프절 종대가 확인되었고, FNAC 결과 갑상선 우엽 종괴는 편평상피세포암종(Bethesda category VI), 2개의 림프절 종대는 전이성 편평상피세포암종으로 진단되었다. 원위부 전이를 확인하기 위해 PET CT를 시행하였으며 갑상선 우엽 및 우측 경부 하부의 FDG uptake 증가 외에 원위부 전이는 없었다. 종괴의 기관 침범을 확인하기 위해 기관지내시경을 시행하였고, 기관 점막의 침범은 없었으나 종괴의 외부 압박에 의한 기관지 내경 감소가 관찰되었다.

이에 갑상선절제술 및 우측 변형근치경부절제술, 우측 부분 후두절제술 및 우측 부분 기관절제술 시행 후 요전완유리피판을 이용한 후두기관재건술을 시행하였다. 수술 소견상 갑상선 종괴는 우측 갑상선연골 및 운상연골의 침범과 2-6번째 기관륜 연골을 침범하고 있었고 기관내부 점막에도 악성 의심소견 보이고 있었다. 종괴 주위로 5 mm 이상의 안전역을 두어 우측 갑상선연골판(lamina) 및 운상연골의 일부(12시-4시)를 절제하였고 피엽연골과 성대는 보존하였다. 1-8번째 기관륜 일부를 포함하여 기관 일부를 절제하였다(Fig. 2). 절제

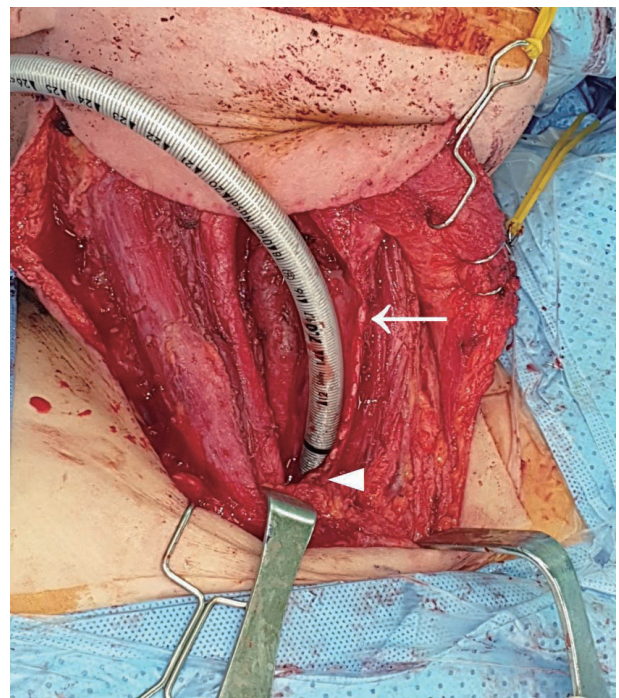


Fig. 2. Intraoperative findings after tracheal resection. Cricoid cartilage (arrow). 8th tracheal ring (arrowhead).

한 기관 우측전방부는 우측 요전완유리피판을 8×5 cm로 도안하여 재건하였으며, 이때 절제된 운상연골 및 갑상선연골 일부도 피판을 사용해 일부 보강 시행하였다(Fig. 3). 수술 후 종괴에서 채취한 조직표본에서 종괴의 크기는 4.0×3.3×3.0

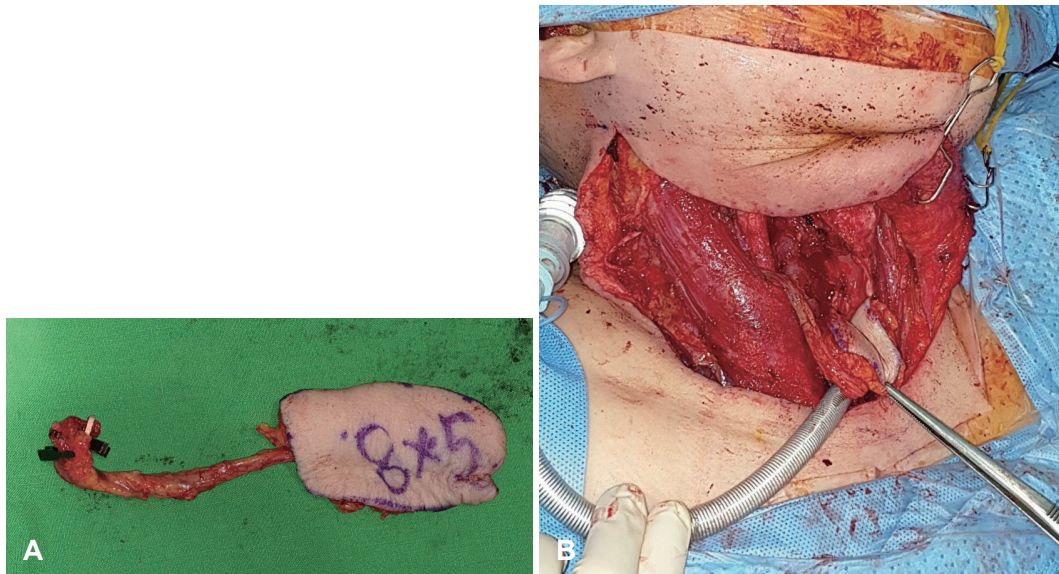


Fig. 3. Radial forearm free flap (80×50 mm) was harvested from the left arm (A) and inserted (B).

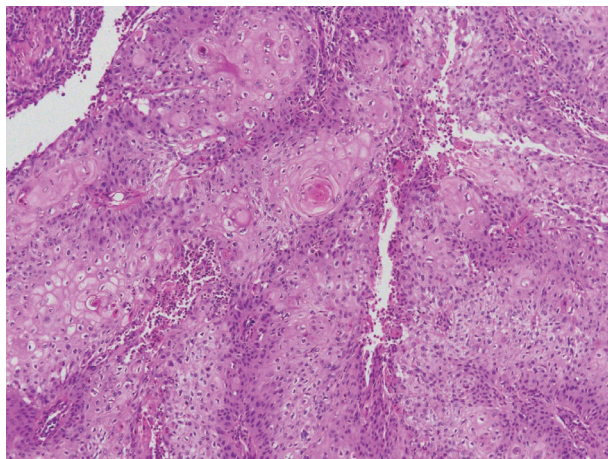


Fig. 4. Histopathological feature. Tumor reveals keratinous pearl and atypical squamous cells (hematoxylin and eosin stain, ×100).

cm였으며 갑상선 편평상피세포암으로 확진되었고(Fig. 4), 갑상연골, 윤상연골 및 기관 점막 침범도 확인되었다. 병리 소견상 변연 침범은 없었고 안전역(safety margin)은 갑상연골에서 0.5 cm, 기관 전방 0.5 cm, 하방 0.5 cm, 후방 0.2 cm, 갑상선 상방 및 전방으로 0.4 cm, 협부쪽으로 1.4 cm가 확인되었고, 우측 경부 level I-VI에서 총 76개의 림프절 중 2개에서 림프절 전이 양성이 확인되었다. 상환 수술 후 7병일에 경구 식이를 시작하였으며 25병일에 기관재건부위 피판 상태 확인(Fig. 5) 후 Montgomery T-tube로 교체하였다. 이후 혈액중양내과로 전과되어 동시항암방사선치료를 시작하였다. Doxorubicin으로 5차까지 항암치료를 시행하였으며 수술부위에 66 Gy를 33회에 나누어 방사선 조사하였다. 환자는 술 후 10개월째 Montgomery T-tube를 Uncuffed fenestrated

T-tube로 교체하였고 12개월에 최종 발판 시행하였다. 술 후 24개월까지 신체검진 및 전산화단층촬영(CT)상 재발소견 없이 추적 관찰 중이다(Fig. 6).

고 찰

갑상선암의 기관 침범은 4%~23% 정도에서 일어나며 오직 0.5%~1.5%에서만 기관벽을 넘어 점막까지 침윤하는 것으로 알려져 있다.⁹⁾ 갑상선기원 편평상피세포암은 더욱 공격적인데, 주증상으로 경부 전방에 큰 종괴가 발생(60%)하며 호흡곤란(20%)이나 연하장애(20%), 발성장애(15%) 등도 동반된다. 후기 단계에서는 주위 기관을 침범하며 식도, 기도, 주위 큰 혈관 등을 침범한다.^{1,10)} 갑상선암이 기도를 침범했을 때 적절한 조치가 취해지지 않는다면 심각한 호흡곤란, 기도출혈, 연하곤란이 발생하며, 고분화 및 저분화 갑상선암의 사망원인 중 절반 이상은 종양에 의한 기도 폐색이나 기도 내 출혈에 의한 것으로 알려져 있다.⁷⁾

갑상선기원 편평상피세포암에서 항암치료 및 방사선치료의 효과는 불확실하다. 특히 다른 편평상피세포암에 비해 방사선에 저항성이 있는 것으로 알려져 있다.^{3,11)} 수술적 치료 없이 방사선치료를 단독으로 시행할 경우 예후가 좋지 않으며 수술적으로 종양을 완전히 제거하는 것이 권유되고 있다.¹¹⁾ 재발을 막기 위해 수술 후에 항암치료 및 방사선치료를 추가로 시행해 볼 수 있지만 효과가 크지 않은 것으로 알려져 있다.^{1,10)} Cho 등¹⁾은 89명의 환자가 포함된 메타분석에서 종양의 완전한 절제만이 유일한 예후인자라고 결론 내렸다. Au 등¹¹⁾의 199명의 환자가 포함된 연구에서 역시 수술적 치료만

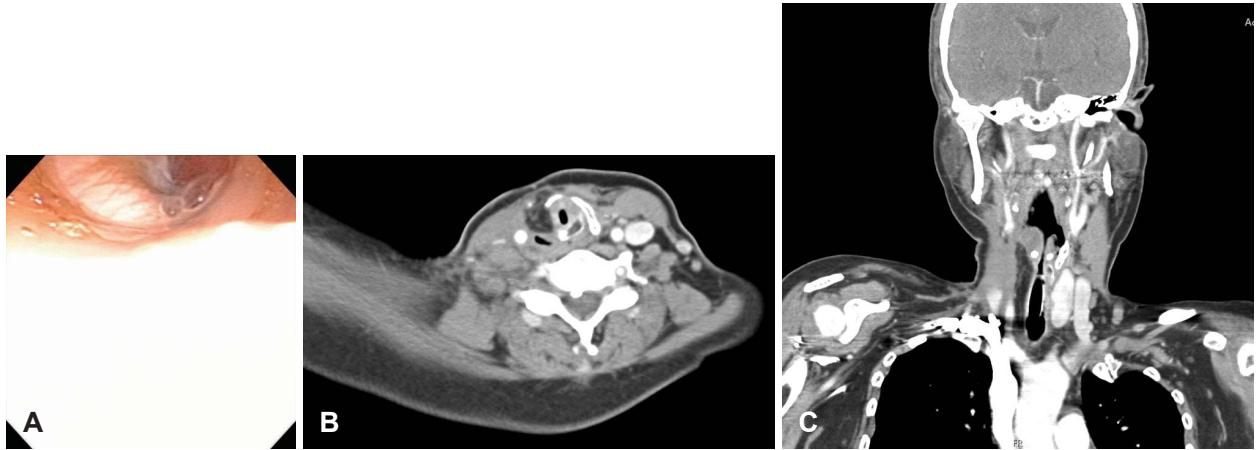


Fig. 5. Postoperative one-month view of the subglottic airway and engrafted free flap. A: Flexible endoscopy. B: Neck CT Axial image. C: Coronal image.

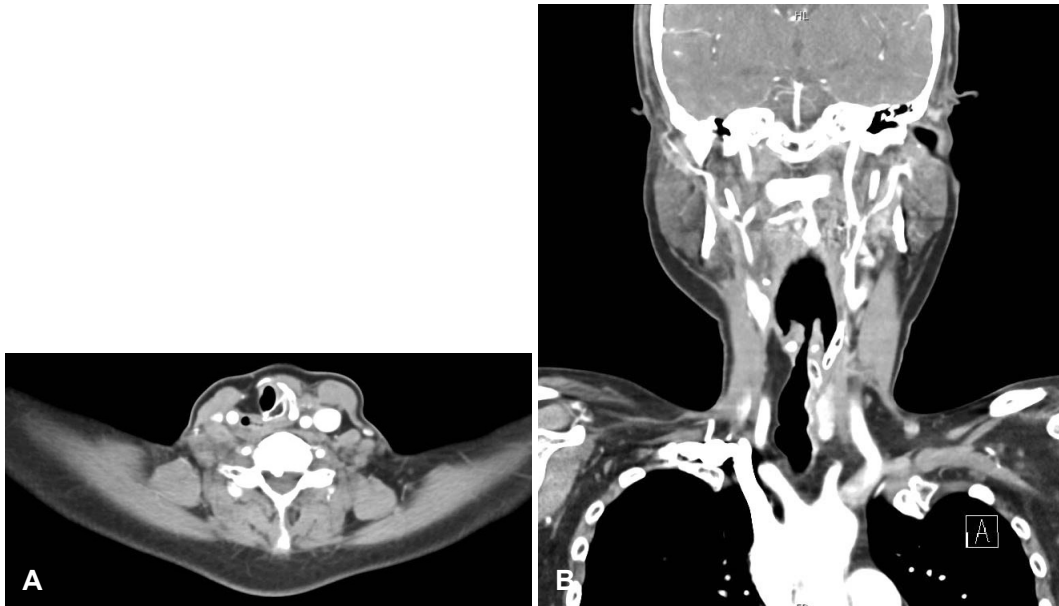


Fig. 6. Two-year postoperative follow-up CT scan of the patient's neck showing intact reconstructed laryngotracheal wall and no evidence of recurrence. A: Axial image. B: Coronal image.

이 독립적으로 예후에 영향을 줄 수 있는 치료방법이라고 결론을 내렸다. 그러므로 기도를 침범한 갑상선암에서 원격 전이가 없는 경우 침윤된 기도 일부를 포함한 병변을 완전 제거할 필요가 있다. 기도 절제의 목표는 종괴의 완전한 제거이며 흔히 3가지 정도의 방법이 시행된다. Tracheal shave excision, full-thickness tracheal window resection 및 soft tissue flap reconstruction, tracheal sleeve resection 및 end to end anastomosis 등이 바로 그것들이다. 술자는 기관지 침범 정도에 따라 어떤 수술을 시행할지 선택해야 한다.^{5,7,9)} 다만 Rotolo 등⁹⁾은 tracheal shaving technique이 불량한 예후 인자이며 종양의 완전 제거를 보장할 수 없으므로 기관 절제 및 장력이 걸리지 않은 재건술을 권고하였다. 본 증례에서는 재건술 없이 기관 결손부위를 후두전척술에서와 같은 개구

부로 만들거나 단단문합술을 시행하는 방법 역시 고려하였지만 결손 부위의 길이 및 환자의 수술 후 삶의 질을 고려하여 연조직을 사용한 재건술을 결정하였다.

기도 재건에 있어 어떤 재료가 가장 유용한지에 관해서는 논란이 있지만 단단한 구조와 상피화된 내벽을 가지고 있고 분비물을 쉽게 제거할 수 있는 재료가 있다면 가장 이상적일 것이다. 다양한 재료가 기관 재건에 사용되고 있지만 현재로서는 거부반응 위험이 적고 면역억제제 사용이 필요하지 않은 자가이식이 가장 좋은 성적을 내고 있으며 자가이식의 재료로는 외이연골, 늑연골, 다양한 유리피판 등이 사용되고 있다. 요전완유리피판은 널리 사용되고 있는 유리피판으로 채취가 쉽고 혈류가 풍부하며 다양한 모양으로 가공하기 쉽다는 장점을 가지고 있는데 이는 기관의 복잡한 삼차원적 구조

를 고려하면 큰 장점이다.⁸⁾ 또한 요전완유리피판은 기도 내부를 피부로 덮어 더 정교한 재건을 할 수 있게 해줄 수 있다는 점에서도 장점을 가지고 있다.¹²⁾ 본 증례에서는 흉쇄유돌근 회전피판을 이용한 국소피판 재건술 역시 방법 중 하나로 고려하였으나 환자의 기관 결손부위가 기관륜 둘레의 40% 이상으로 넓다는 것을 고려하여 요전완유리피판을 사용한 재건술을 시행하였다.

갑상선암이 기도를 침범했을 때 기도를 침범한 종양을 절제하는 것은 생존율을 올려주지만 이에는 여러 수술 후 합병증 역시 따른다.^{7,9)} 기관지절제의 합병증은 15%–39%에서 발생하며 사망률은 1.2%로 추정된다. 합병증으로는 문합부의 파열, 기도 협착, 감염, 출혈, 종양의 재발 등이 있다. 문합의 파열은 가장 위험한 합병증 중 하나로 4%–14% 확률로 발생하며 그 사망률은 7.8%에 이른다. 그 가장 큰 위험인자로는 절제한 기관의 길이를 끊으며 절단한 기관길이가 4–6 cm가 넘는 경우 위험이 유의미하게 올라간다고 여겨진다. 수술 후 문합부에 장력이 걸리지 않게 하는 것이 중요하며 턱을 가슴 쪽으로 당기고 있는 자세를 유지하는 것이 문합부 보호에 도움이 된다고 알려져 있다.^{5,9)}

기관을 침범한 갑상선암의 재발률은 8%–60%로 여겨지며 재발시점의 중간값은 47.6개월이다.⁹⁾ 갑상선기원 편평상피세포암으로 한정할 경우 예후는 이보다 더욱 나쁠 것으로 추정된다.

본 증례에서는 빠른 진단과 적절한 수술적 치료를 통해 종양을 모두 제거하였으며 2년간의 추적 관찰 결과에도 재발 소견은 나타나지 않았으며 특별한 합병증 소견 역시 나타나지 않았다.

Acknowledgments

None

Author Contribution

Conceptualization: Young-Hoon Joo. Writing—original draft: Jae-Hoon Jung. Writing—review & editing: Ju-Eun Lee, So-Hyun Kim, Young-Hoon Joo.

ORCIDs

Jae-Hoon Jung <https://orcid.org/0000-0001-9755-682X>
Ju-Eun Lee <https://orcid.org/0000-0002-4606-4195>
So-Hyun Kim <https://orcid.org/0000-0003-2814-6792>
Young-Hoon Joo <https://orcid.org/0000-0002-1158-0974>

REFERENCES

- 1) Cho JK, Woo SH, Park J, Kim MJ, Jeong HS. Primary squamous cell carcinomas in the thyroid gland: An individual participant data meta-analysis. *Cancer Med* 2014;3(5):1396-403.
- 2) Tunio MA, Al Asiri M, Fagih M, Akasha R. Primary squamous cell carcinoma of thyroid: A case report and review of literature. *Head Neck Oncol* 2012;4:8.
- 3) Limberg J, Ullmann TM, Stefanova D, Finnerty BM, Beninato T, Fahey TJ 3rd, et al. Prognostic characteristics of primary squamous cell carcinoma of the thyroid: A national cancer database analysis. *World J Surg* 2020;44(2):348-55.
- 4) Xin S, Li W, Yuan N, Shen C, Zhang D, Chai S. Primary squamous cell carcinoma of the thyroid: A case report. *J Int Med Res* 2021; 49(4):3000605211004702.
- 5) Nguyen HX, Le Trinh H, Nguyen HX, Nguyen HV, Le QV. Surgical treatment of advanced thyroid cancer with tracheal invasion. *Case Rep Endocrinol* 2021;2021:8823405.
- 6) Lee YH, Kim JH, Kim WS. A case of tracheal defect reconstruction using anterolateral thigh free flap in patients with papillary thyroid carcinoma invading tracheal cartilage. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2017;60(6):318-21.
- 7) Allen M, Spillinger A, Arianpour K, Johnson J, Johnson AP, Folbe AJ, et al. Tracheal resection in the management of thyroid cancer: An evidence-based approach. *Laryngoscope* 2021;131(4):932-46.
- 8) Fujiwara T, Nishino K, Numajiri T. Tracheal reconstruction with a prefabricated and double-folded radial forearm free flap. *J Plast Reconstr Aesthet Surg* 2009;62(6):790-4.
- 9) Rotolo N, Cattoni M, Imperatori A. Complications from tracheal resection for thyroid carcinoma. *Gland Surg* 2017;6(5):574-8.
- 10) Bolfi F, Domingues MA, Sobrinho-Simões M, Soares P, Celestino R, Castilho EC, et al. Primary squamous cell carcinoma of the thyroid diagnosed as anaplastic carcinoma: Failure in fine-needle aspiration cytology? *Case Rep Pathol* 2014;2014:301780.
- 11) Au JK, Alonso J, Kuan EC, Arshi A, St John MA. Primary squamous cell carcinoma of the thyroid: A population-based analysis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2017;157(1):25-9.
- 12) Balasubramanian D, Thankappan K, Shetty S, Jayaprasad K, Mathew J, Iyer S. Cricotracheal reconstruction with free radial forearm flap and titanium mesh. *Head Neck* 2013;35(6):E178-80.