

갑상선 낭종으로 오인된 경부 기관지원성 낭종

전남대학교 의과대학 화순전남대학교병원 이비인후-두경부외과학교실¹, 내과학교실²

강성훈¹, 진성민¹, 김희경², 윤태미¹

Cervical Bronchogenic Cyst Mimicking Thyroid Cyst

Sung Hoon Kang¹, Sung Min Jin¹, Hee Kyung Kim² and Tae Mi Yoon¹

Departments of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery¹, Internal Medicine², Chonnam National University Medical School and Hwasun Hospital, Hwasun, Korea

Bronchogenic cysts are rare congenital malformations that result from an abnormal development of the ventral foregut budding of the tracheobronchial tree at the time of organogenesis. They are usually located in the mediastinum and intrapulmonary regions. Localization in the cervical area is unusual, and specially, bronchogenic cysts presenting as thyroid and perithyroid cyst are quite rare. We report a case of bronchogenic cyst mimicking a thyroid colloid cyst. We tried percutaneous ethanol injection at 3 times for treatment of this thyroid cyst, but we failed, because of intractable cough. After cyst excision with thyroid lobectomy, we diagnosed the lesion to bronchogenic cyst. Bronchogenic cyst should be considered in the differential diagnosis of perithyroid cyst, which especially the lesion is intolerable cyst to ethanol injection.

Key Words: Bronchogenic cyst, Thyroid cyst, Colloid cysts, Sclerotherapy

서 론

기관지원성 낭종은 복측 전장의 기관 형성 과정에서 일어나는 드문 양성 선천성 기형으로, 태생기 동안 기관-기관지 가지의 비정상적 발아로 인해 발생하는 것으로 생각된다.¹⁻³⁾ 기관지원성 낭종은 일반적으로 젊은 연령층에서, 특히 남성에서 발생하는 것으로 알려져 있으며, 종격동과 폐실질에서 주로 발견되며 경부에서 발견되는 경우는 드물다.^{1,3,4)} 하지만 태생기 발생과정에서 다양한 위치로 이동이 가능하며, 피부병변, 경막 내 병변, 경부의 쇄골상부 등에서의 발현이 보고된 바 있다.⁵⁻⁷⁾

최근 저자들은 전우측 경부 종괴를 주소로 내원하여, 검사상 갑상선 교질성 낭종으로 진단되어 경피적

에탄올 주입술을 시행하였으나 심한 기침으로 실패하였던 환자에서, 수술적 절제를 통해 우측 갑상선 하부에서 기관으로 연결되는 기관지원성 낭종으로 진단되었던 증례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

17세 여자 환자가 5년 전부터 지속된 전우측 경부종괴 및 2주 전부터 발생한 경부 불편감을 주소로 내원하였다. 과거력상 기저질환 및 수술기왕력은 없었으며, 애성, 연하곤란, 호흡곤란 등의 증상은 없었다. 이학적 검사상 전우측 경부에 낭성 종괴가 만져졌으며, 그 외 경부에 특이소견은 없었다. 갑상선기능검사상 free T4 1.52 ng/dL (정상범위, 0.8-1.71), triiodothyronine (T3) 1.13

Received June 2, 2017 / Revised August 18, 2017 / Accepted September 8, 2017

Correspondence: Tae Mi Yoon, MD, PhD, Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Chonnam National University Medical School and Hwasun Hospital, 322 Seoyang-ro, Hwasun-eup, Hwasun 58128, Korea
Tel: 82-61-379-8190, Fax: 82-61-379-8199, E-mail: yoonm@chonnam.ac.kr

Copyright © 2017, the Korean Thyroid Association. All rights reserved.

© This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://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. CT scans with contrast enhancement shows 5×5 cm well-defined cyst, originated from right thyroid gland, extending to upper mediastinum. (A, B) Axial views, (C) Coronal view.

ng/mL (정상범위, 0.6-1.6), thyroid stimulating hormone (TSH) 0.184 μ IU/mL (정상범위, 0.4-4.8), parathyroid hormone (PTH) 52.7 (정상범위, 15-68.3)이었다. 컴퓨터단층촬영(CT)에서 갑상선 우엽 하부에 유래하는 것으로 보이는, 경계가 분명한 5×5 cm 크기의 낭종이 하방으로는 종격동까지 진행하고 있었고, 상방으로는 기관벽을 따라 부착되어 있었으며, 기관의 우측 전위가 동반되었다(Fig. 1). 갑상선초음파(ultrasonography, US)상, 우측 갑상선 하부의 저에코 낭종 내부에 다발성 혜성꼬리 허상(multiple comet-tail artifact)을 보여 교질성 낭종이 의심되었고(Fig. 2), 흡입 시에 진한 갈색의 점액성 액체가 얻어졌으며, 세포검사상 양성 여포성 결절 소견을 보였다. 이상의 결과를 토대로, 갑상선 교질성 낭종 의심 하에 먼저 경피적 에탄올 주입술을 시행하였다. 갑상선초음파 유도하에 30 cc 가량의 교질성 액체를 흡인 제거한 후 에탄올 주입을 시도하였으나, 주입 직후에 심한 기침이 발생하여 실패하였고, 이후 2차례 더 시도하였으나 동일하게 심한 기침으로 인해 주입술을 진행할 수 없었다. 이에 수술을 시행하였으며, 통상적인 경부접근법을 사용하였다. 수술 소견상 우측 갑상선 하부에서 두꺼운 벽으로 이루어진 5 cm 크기의 낭종이 관찰되었고, 낭종이 갑상선 조직과 기관 사이를 따라 상부로 위치하는 양상을 보였으며, 낭종 벽의 상부 부분은 연골로 이루어져 있어 그 끝이 첫 번째 기관 연골과 연결되어 있었다(Fig. 3A). 낭종 벽에 반회후두신경이 유착되어 있었으나 분리가 가능하여 반회후두신경을 보존할 수 있었고(Fig. 3B), 낭종과 갑상선 조직 사이의 유착으로 갑상선 우엽과 함께 낭종 절제술을 시행하였다(Fig. 3C). 낭종벽과 연결된

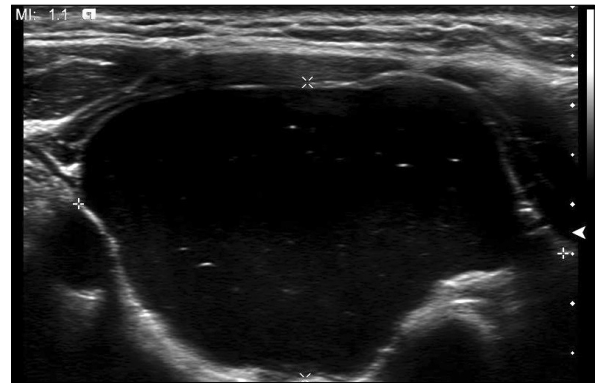


Fig. 2. Thyroid US reveals 5×5 cm sized hypoechoic pure cyst with multiple comet-tail artifact at lower pole of right thyroid lobe.

첫 번째 기관 연골은 재발을 억제하기 위해 연골막은 면도절제하였으며, 연결된 첫 번째 기관 연골에 육안상 천공을 보이지 않았다. 병리조직검사상 낭종벽은 초자연골과 점액선을 가지고 있었으며, 호흡상피세포로 이루어져 있어 기관지원성 낭종으로 진단되었다(Fig. 4). 수술 후 일시적 성대마비가 관찰되었으나 완전히 회복되었으며, 수술 후 18개월이 지난 현재, 특이한 증상 및 재발 없이 외래 추적관찰 중이다.

고 찰

기관지원성 낭종은 기관-기관지의 태생기 발생 중에 일어나는 드문 질환으로, 기관과 식도는 발생 3주경 복측 원시 전장에서 나뉘어져 그 이후 줄기기관지-엽기관지가 출현하는데, 이 과정에서 생긴 선천성 기형이다.¹⁾ 주로 소아기에 발견되는데 6세 이하에서 호발하

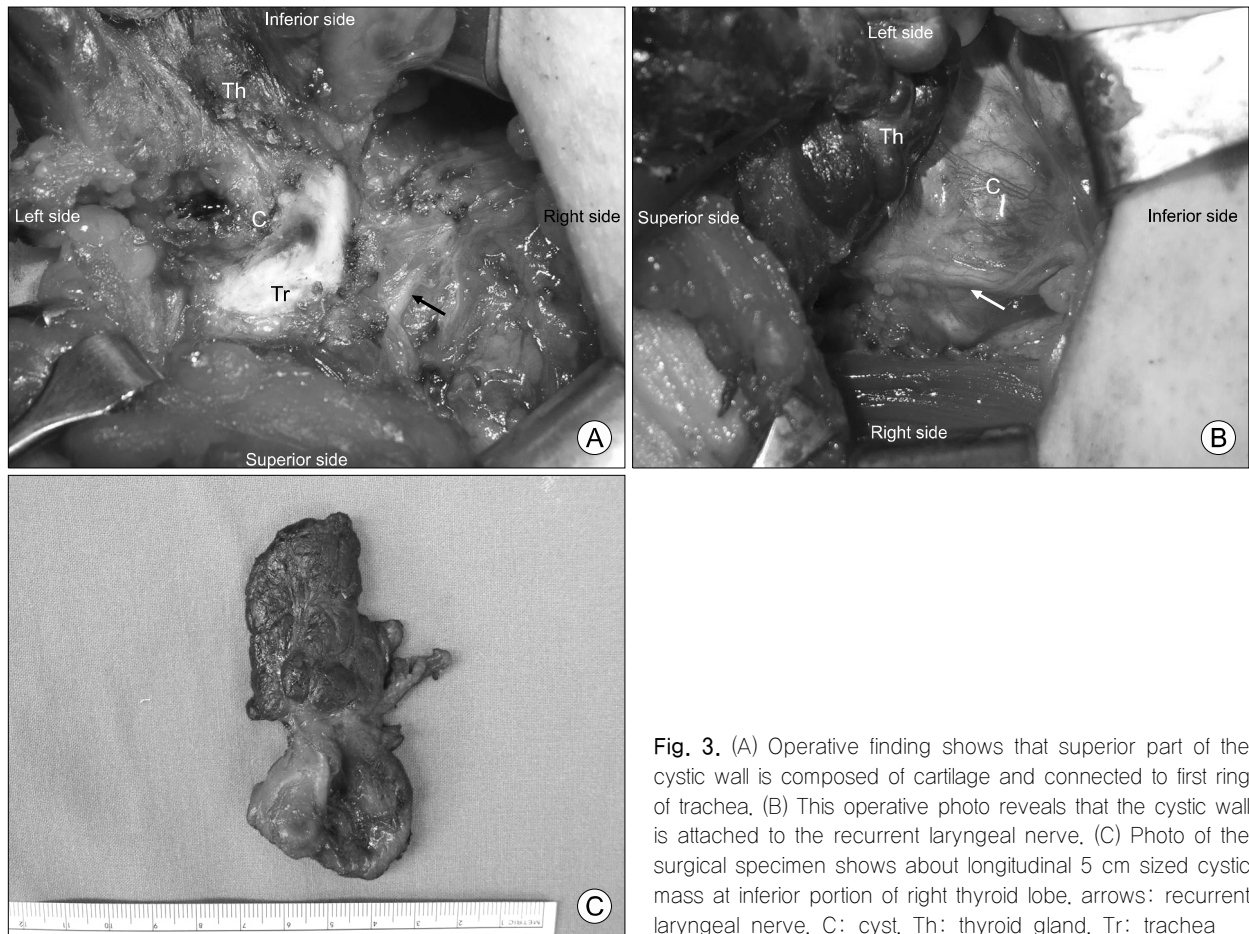


Fig. 3. (A) Operative finding shows that superior part of the cystic wall is composed of cartilage and connected to first ring of trachea. (B) This operative photo reveals that the cystic wall is attached to the recurrent laryngeal nerve. (C) Photo of the surgical specimen shows about longitudinal 5 cm sized cystic mass at inferior portion of right thyroid lobe. arrows: recurrent laryngeal nerve, C: cyst, Th: thyroid gland, Tr: trachea

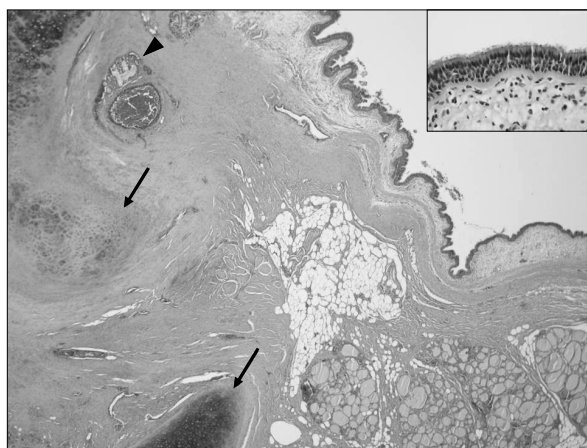


Fig. 4. Histopathologic photo shows that cystic wall contains mucoserous glands (arrowhead) and hyaline cartilage (arrows), which is consistent with bronchogenic cyst (H&E staining, $\times 100$). Cystic lesion is lined by respiratory type epithelium (inlet, H&E staining, $\times 200$).

고, 성인에서도 비교적 젊은 연령대에서 진단되는 것으로 보고되었으며, 남성에서 좀 더 호발하는 것으로

알려져 있다.^{1,3,8)} 기관지원성 낭종은 보통 무증상으로 우연한 방사선검사상 이상으로 발견되는 경우가 많으나, 통증, 기침, 기관-기관지 압박으로 인한 천명, 호흡 곤란, 낭종의 감염으로 인한 발열 등 여러 증상을 일으킬 수 있다.^{2,9,10)} 특히 소아에서는 진단 당시 천명, 연하 곤란 및 압박증상 등이 흔한 것으로 알려져 있다.^{5,10,11)} 대부분의 흉곽 내 기관지원성 낭종은 흉부 엑스레이검사상 확인이 가능하며, 균일한 음영을 나타내고 공기-액체 음영을 보이기도 한다.^{1,12,13)} 흉곽 내의 가장 흔한 위치는 기관주위, 폐문 부위, 기관분지 부위로, CT를 시행하면 정확한 병변의 위치를 확인할 수 있고, 대개 내부에 액체가 차있는 둥글고 경계가 좋은 종괴로 관찰된다.¹⁴⁾ 자기공명영상 소견에 대해서는 T1 및 T2 강조영상에서 모두 강한 신호를 보이는 것으로 알려져 있으며,⁵⁾ US에서는 보통 주위와 경계가 분명하고, 단방형의 균질한 저에코 낭종(unilocular homogenous hypoechoic cyst)으로 관찰된다.¹⁵⁻¹⁷⁾ 이러한 영상 검사는 낭종의 수술적 계획을 세우는 데 도움이 되지만, 기관지원성 낭종의 진단 및 갑상선 낭종을 포함한 여러 종

류의 경부 낭종들과의 감별진단에는 크게 도움이 되지 못하는 경우가 많다.^{15,18,19)}

기관지원성 낭종의 최종진단은 대개 수술적 절제 후 병리조직학적 소견에 기반한다.¹⁻⁷⁾ 기관지원성 낭종은 거짓중층섬모원주상피로 구성되어 있으며, 조직학적으로 정상 호흡기계의 조직들이 모두 포함될 수 있어 장점액선, 호흡상피, 평활근 및 초자연골 등이 포함되지만 진단을 위해 모든 조직이 필요하지는 않다.¹⁻⁷⁾ 기관지원성 낭종이 경부에 발생하였을 때, 감별해야 할 질환으로 갑상선관낭종, 부갑상선 낭종, 갑상선 낭종, 흉선낭종, 새열낭종, 기형종, 유괴낭종, 림프관종, 유두상암종의 낭성변화, 기관계실, 양성 신경종양 등이 있으며, 현실적으로 모든 경부 양성 종괴를 감별해야 한다.^{1-3,20)} 본 증례에서 수술 전 의심하였던 갑상선 낭종의 경우에는 조직학적으로 갑상선 여포의 증식이 관찰되므로 기관지원성 낭종과 쉽게 감별할 수 있다.¹⁴⁾

본 증례의 경우는 낭종이 커지면서 경부 종괴로 발견되었으며, 약간의 경부 불편감이 있었으나 비특이적 증상으로 생각되었다. US, CT에서 보이는 낭종의 위치 및 성상을 통해 갑상선 교질성 낭종일 가능성을 높게 보았고, 이에 경피적 에탄올 주입술을 시행하였다. 경피적 에탄올 주입술은 반복적 흡인에도 재발하는 갑상선 낭종에서 효과적인 비수술적 치료로 인정되고 있으며, 국내외적으로 많이 시행되고 있는 치료법이다.²¹⁾ 저자들이 주목한 점은 경피적 에탄올 주입술에 반복적으로 심한 기침을 보였던 부분으로, 수술 소견상 낭종의 끝이 기관연골과 연결되어 있었고 육안상 확인되지는 않았지만 기관점막과 낭종 간에 미세한 연결이 이러한 자극 증상을 일으켰을 가능성이 있다. 좀 더 많은 증례 보고가 뒷받침되어야 할 것으로 생각되지만, 경피적 에탄올 주입술에 심한 자극 증상을 보였을 때, 기관지원성 낭종을 포함한 기관과의 연결성을 가지는 선천성 병변이 감별진단에 포함되어야 할 것으로 생각된다.

기관지원성 낭종의 치료는 수술적 절제가 원칙이며, 이는 수술의 합병증 위험도가 높지 않고, 낭종의 악성변이 가능성을 배제할 수 없기 때문이다.^{15,19,20)} 경부에 발생한 경우 경부접근법을 이용한 완전절제를 시행하여야 재발을 줄일 수 있다.^{15,19,20)} 감염에 의한 염증이 없었다면 주위 조직과의 박리가 용이한 것으로 보고되었으나,¹⁾ 본 증례에서는 주위 조직 및 갑상선과의 유착이 관찰되었는데 소량 주입되었지만 에탄올 주입술이 영향을 미쳤을 수 있다고 생각된다. 이런 경우 반회 후두신경과 경동맥과 같은 주위 중요 기관에 유의하여 수술을 진행해야 수술 후 합병증을 줄일 수 있다.

중심 단어: 기관지원성 낭종, 갑상선 낭종, 교질성 낭종, 경화치료.

References

- 1) Newkirk KA, Tassler AB, Krowiak EJ, Deeb ZE. Bronchogenic cysts of the neck in adults. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2004;113(9):691-5.
- 2) Shimizu J, Kawaura Y, Tatsuzawa Y, Maeda K, Suzuki S. Cervical bronchogenic cyst that presented as a thyroid cyst. *Eur J Surg* 2000;166(8):659-61.
- 3) Barsotti P, Chatzimichalis A, Massard G, Wihlm JM. Cervical bronchogenic cyst mimicking thyroid adenoma. *Eur J Cardiothorac Surg* 1998;13(5):612-4.
- 4) St-Georges R, Deslauriers J, Duranceau A, Vaillancourt R, Deschamps C, Beauchamp G, et al. Clinical spectrum of bronchogenic cysts of the mediastinum and lung in the adult. *Ann Thorac Surg* 1991;52(1):6-13.
- 5) Zvulunov A, Amichai B, Grunwald MH, Avinoach I, Halevy S. Cutaneous bronchogenic cyst: delineation of a poorly recognized lesion. *Pediatr Dermatol* 1998;15(4):277-81.
- 6) Rao GP, Bhaskar G, Reddy PK. Cervical intradural extramedullary bronchiogenic cyst. *Neurol India* 1999;47(1):79-81.
- 7) Constant E, Davis DG, Edminster R. Bronchogenic cyst of the suprasternal area. Case report. *Plast Reconstr Surg* 1973;52(1):88-90.
- 8) Jiang JH, Yen SL, Lee SY, Chuang JH. Differences in the distribution and presentation of bronchogenic cysts between adults and children. *J Pediatr Surg* 2015;50(3):399-401.
- 9) Ribet ME, Copin MC, Gosselin BH. Bronchogenic cysts of the lung. *Ann Thorac Surg* 1996;61(6):1636-40.
- 10) Goswamy J, de Kruijf S, Humphrey G, Rothera MP, Bruce IA. Bronchogenic cysts as a cause of infantile stridor: case report and literature review. *J Laryngol Otol* 2011;125(10):1094-7.
- 11) Trossman CM. Push-up stridor caused by a bronchogenic cyst. *Am J Dis Child* 1964;107:293-6.
- 12) Suen HC, Mathisen DJ, Grillo HC, LeBlanc J, McLoud TC, Moncure AC, et al. Surgical management and radiological characteristics of bronchogenic cysts. *Ann Thorac Surg* 1993;55(2):476-81.
- 13) Touloukian RJ. Air filled bronchogenic cyst presenting as a cervical mass in the newborn. *J Pediatr Surg* 1982;17(3):311-2.
- 14) Lee JD, Koh YW, Lee SW, Kim HK. A case of cervical bronchogenic cyst presenting as a thyroid tumor. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2006;49(1):98-101.
- 15) Hazenberg AJ, Pullmann LM, Henke RP, Hoppe F. Recurrent neck abscess due to a bronchogenic cyst in an adult. *J Laryngol Otol* 2010;124(12):1325-8.
- 16) Jeon HG, Park JH, Park HM, Kwon WJ, Cha HJ, Lee YJ, et al. Non-infected and infected bronchogenic cyst: The correlation of image findings with cyst content. *Tuberc Respir Dis (Seoul)* 2014;76(2):88-92.
- 17) Kiralj A, Vuckovic N, Mijatov I. Congenital cervical bronchogenic cyst: A case report. *Srp Arh Celok Lek* 2015;143(5-6):317-21.
- 18) Liu Z, Tian Z, Zhang C, He Y. Ectopic congenital bronchogenic cyst accompanied by infection appearing in the cervical

- region of an elderly female patient: A case report. Oncol Lett* 2016;11(2):1065-8.
- 19) Lee DH, Yoon TM, Lee JK, Lim SC. *Bronchogenic cyst in the head and neck region. J Craniofac Surg* 2017;28(4):e303-5.
 - 20) Ustundag E, Iseri M, Keskin G, Yayla B, Muezzinoglu B. *Cervical bronchogenic cysts in head and neck region. J Laryngol Otol* 2005;119(6):419-23.
 - 21) Reverter JL, Alonso N, Avila M, Lucas A, Mauricio D, Puig-Domingo M. *Evaluation of efficacy, safety, pain perception and health-related quality of life of percutaneous ethanol injection as first-line treatment in symptomatic thyroid cysts. BMC Endocr Disord* 2015;15:73.