

후두암의 경부 전이로 오인된 측경부 미입 갑상샘에서 발생한 유두상 암종 1예

중앙보훈병원 이비인후과¹, 병리과²

최전하¹, 김춘동¹, 김은주², 김승우¹

Papillary Thyroid Cancer from Lateral Aberrant Thyroid Masquerading as Cervical Metastasis from Larynx Cancer: A Case Report

Jeon Ha Choi¹, Choon Dong Kim¹, Eun Ju Kim² and Seung Woo Kim¹

Departments of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery¹, Pathology², Veterans Health Service Medical Center, Seoul, Korea

The aberrant or ectopic thyroid in lateral neck is a rare developmental anomaly. Furthermore, the primary thyroid carcinoma arising in ectopic thyroid is extremely rare, only a few cases have been reported so far in English literature. We report a 64-year-old male with left transglottic cancer and primary papillary carcinoma from lateral aberrant thyroid in left lateral neck. Preoperatively, we diagnosed as transglottic cancer with ipsilateral neck metastasis. The patient underwent total laryngectomy, left selective neck dissection and left thyroidectomy. Finally, the patient was diagnosed as left transglottic cancer and papillary carcinoma from lateral aberrant thyroid. Surgeons should take into account a primary ectopic thyroid carcinoma arising in lateral neck may co-exist with another type of head and neck tumor.

Key Words: Aberrant thyroid, Papillary cancer

서 론

미입 또는 이소성 갑상샘(aberrant or ectopic thyroid)은 두 번째에서 네 번째 기관 연골의 전측부 이외의 곳에 위치하는 갑상샘 조직을 지칭한다.¹⁾ 발생학적으로 갑상샘 원기의 정상적 하강의 실패가 원인이며, 설맹공 주변이 가장 흔하고(90%), 설골, 상부 종격동, 악하선과 식도 주변 등에서 발생한다.²⁾ 매우 드물지만, 외측 경부에서도 발견되며, 이를 외측 미입 갑상샘이라고도 한다. 동측 갑상샘에 병변 없이 외측 경부의 갑

상샘 잔존 조직에서 원발암이 발생하는 경우에는 조직학적으로 유두상 암종이 가장 흔하며, 역형성 암종의 국내 보고도 있었다.^{3,4)}

저자들은 술 전 후두암의 경부전이로 의심된 환자에서 최종적으로 측경부 미입 갑상샘에서 발생한 유두상 암종으로 진단된 증례를 체험하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

64세 남자환자가 내원 3개월 전부터 발생한 애성, 경

Received February 2, 2015 / Revised March 25, 2015 / Accepted April 12, 2015

Correspondence: Seung Woo Kim, MD, Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Veterans Health Service Medical Center, 53 Jinhwangdo-ro 61-gil, Gangdong-gu, Seoul 134-791, Korea

Tel: 82-2-2225-1384, Fax: 82-2-2225-1385, E-mail: entzzang1020@daum.net

Copyright © 2015, 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.

부 이물감과 호흡곤란 등을 주소로 본원 이비인후과에 내원하였다. 후두 내시경검사서 성대의 전 연합부, 성문 하부와 좌측 진성대를 침범하는 종물이 관찰되었고, 좌측 완전 성대마비와 이상동에 타액이 정체되어 있는 소견이 관찰되었다. 신체검사상 경부에 촉진되는 림프절은 없었고, 구강 및 구인두 등에 특이 소견이 없었다. 흡연력은 30갑년이었고, 음주력은 매우 소량이었다. 조절되는 고혈압이 있었고, 갑상샘 기능 검사를 포함한 혈액검사는 정상 범위였다.

경부 전산화단층촬영과 자기공명영상촬영에서 성대 전 연합부, 좌측 진성대, 성문 하부와 운상 연골 등을 침범하는 1.2×2.1 cm 크기의 조영증강되는 종물이 관찰되었다. 또한 좌측 level III에 내경정맥과 연해 있으며, 자기공명영상에서만 약간 조영증강되는 0.9×0.8 cm 크기의 구형 종물이 관찰되었고, 좌엽 갑상샘 중간 부위에 1.3×1.2 cm 크기의 구형의 저밀도 결절이 관찰되었다(Fig. 1A-D). 경부 초음파에서는 좌측 갑상샘의 중간 위치에 1.4×1.1 cm 크기의 경계가 명확한 구형의 등에코 결절이 관찰되었고, 좌측 측경부에는 내경정맥 근처에, 1×0.8 cm 크기의 난원형의 저에코 종물이 관찰되었다(Fig. 1E). 후두 미세수술에서 좌측 진성대의 종괴는 편평상피세포 암종으로 진단되었고, 좌측 갑상

샘에서 시행한 초음파유도하 세침흡인 세포검사에서는 베테스다 분류 III (ACUS, atypical cells of undetermined significance)로 보고되었다. 양전자방출단층촬영에서 좌측 성대에 표준 섭취 값(standard uptake value, SUV) 20.4인 병변과 좌측 level III에 표준 섭취 값 2.2인 종물이 관찰되었다(Fig. 2).

이상의 소견을 종합하여 경부 전이를 동반한 경성문

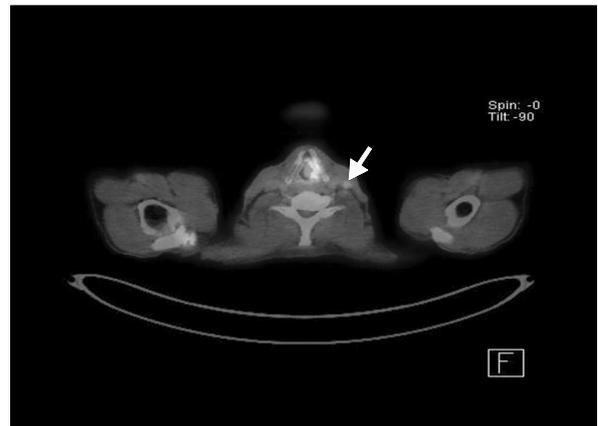


Fig. 2. Preoperative PET CT scans. It shows strong FDG uptake on left vocal cord (standard uptake value, 20.4), mild uptake on left level III (SUV, 2.2) (white arrow).

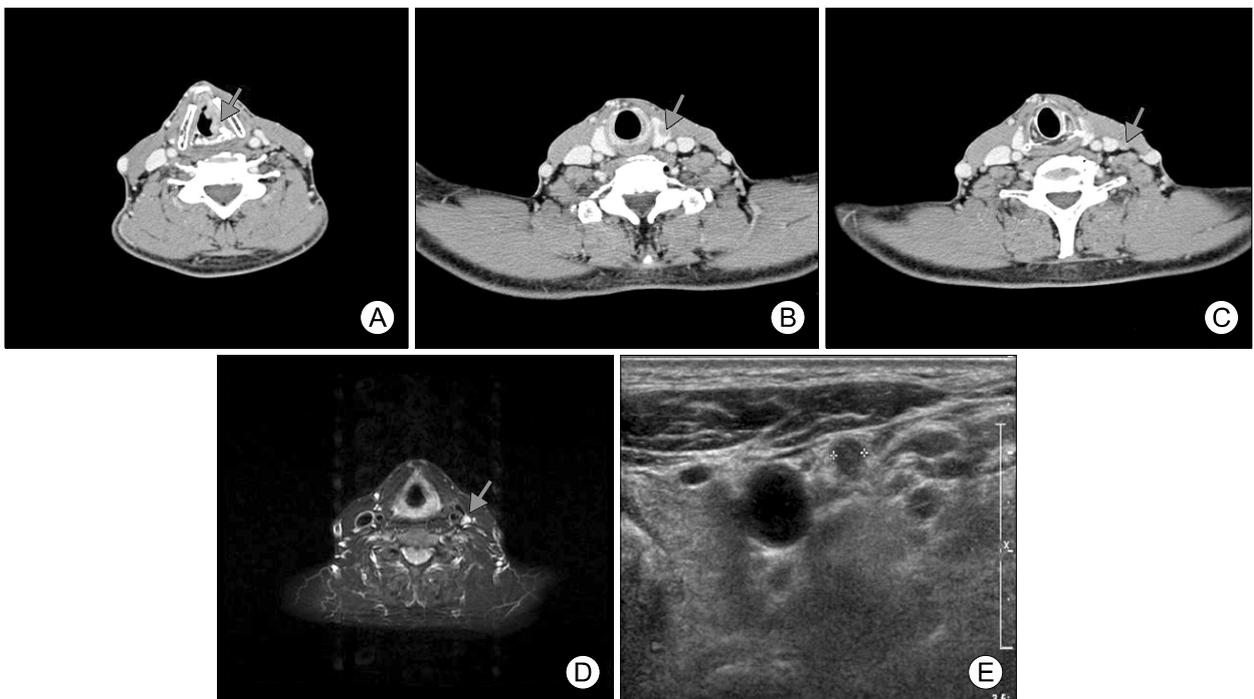


Fig. 1. Preoperative imaging studies. (A) Neck CT scan shows 1.2×2.1 cm sized enhanced soft tissue mass in left true vocal cord (arrow). (B) Neck CT scan shows 1.3×1.2 cm sized nodule in left thyroid gland (arrow). (C) Neck CT scan shows 0.8×0.9 cm sized iso-dense round mass in left level III (arrow). (D) T2-weighted MRI shows slight high signal intensity mass in left level III (arrow). (E) Ultrasonographic image shows about 1×0.8 cm sized ovoid hypoechoic nodule in the left lateral neck (asterisk).

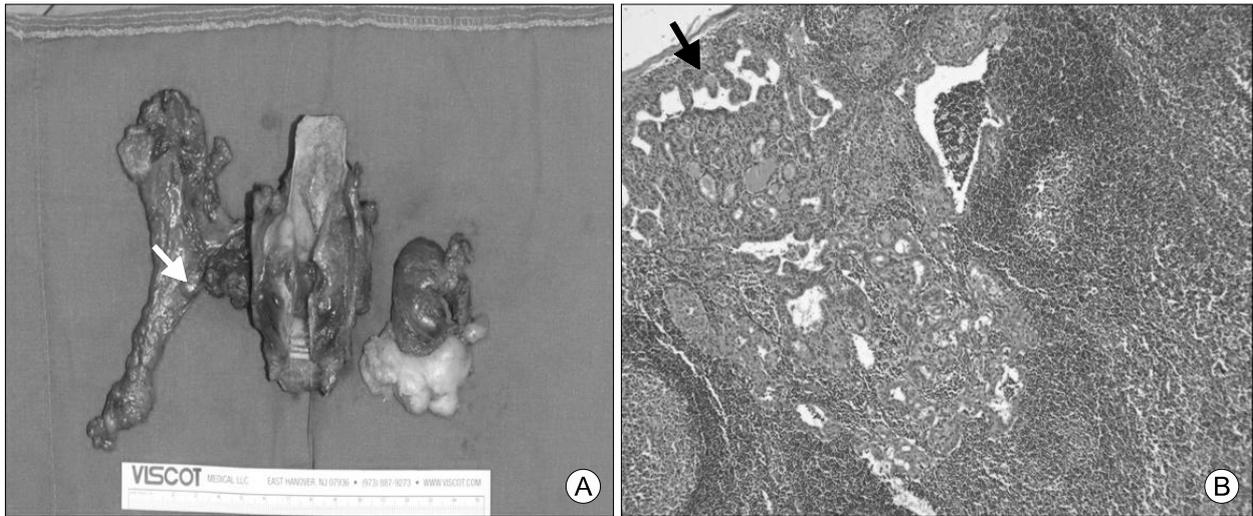


Fig. 3. Pathologic findings. (A) Gross photograph shows the specimen of total laryngectomy with left selective neck dissection and left thyroidectomy. The white arrow indicates small lymph node in level III. (B) Microscopic findings: The fronds of tissue have thin fibrovascular cores and an overall papillary pattern. The black arrow indicates papillary architectures (H&E, $\times 100$).

암(cT3N1M0)으로 진단하고, 후두 전적출술, 좌측 선택적 경부 청소술(II-V)과 좌측 갑상샘절제술을 시행하였다. 술 후 최종 병리소견에서 경성문암(pT3N0M0)과 좌측 level III의 종물은 유두상 갑상샘 암종으로 진단되었고, 좌측 갑상샘은 결정성 증식증으로 진단되었다(Fig. 3A, B). 술 후 2주에 우측 완성형 갑상샘절제술과 중심 림프절절제술을 시행하였으며, 우측 갑상샘과 중심 림프절에서는 특이한 병리소견 없다고 보고되었다. 일차성 이소성 갑상샘 암종과 잠복 전이에 의한 전이성 유두상 암종을 감별하기 위하여, 좌측 갑상샘제거술 시 같이 적출된 전윤상 림프절(pretracheal lymph node)에 대해서 galectin-3와 p63에 대한 면역염색 결과 음성이었다. 또한 병리과에서 양측 갑상샘 전부(whole thyroid gland)를 다시 평가했다. 양측 갑상샘을 1-2 mm 두께로 다시 잘라서 100개 이상의 절편을 만들어 다시 관찰했는데, 미세 유두상 암종의 징후는 없었다. 최종적으로 경성문암과 좌측 이소성 갑상샘에 발생한 유두상 암종으로 진단되었다.

후두암의 추가 치료는 후두암의 림프절 전이 소견이 없어서, 시행하지 않았으며, 150 mCi의 고농도 방사성 요오드 치료를 받았으며, 술 후 14개월째 재발 소견 없이 추적 관찰 중이다.

고 찰

외측 미입 갑상샘은 두 개의 외측 갑상샘 원기(lateral thyroid anlage)가 후쇄관체(ultimobranchial body)와

합쳐지는 과정의 이상으로 외측 경부 및 악하선 등에서 갑상샘 조직이 발견되는 경우이다.⁵⁾ 발생 빈도는 갑상샘 수술을 받은 환자 중 약 0.2%에서 발견된다고 하며, 약 70-90%의 환자에서 유일한 갑상샘 조직으로 나타난다.⁶⁾ 인종적으로는 아시아계 여성에서 흔하며 어느 연령대에서나 발생할 수 있지만 주로 15세 미만에서 많이 발견된다.⁷⁾ 미입 갑상샘은 형태학적으로 갑상샘에 결체조직에 의해 연결되어 있는 종물의 형태로 발견되는 경우도 있고, 경부 림프절에서 발견되기도 한다.⁸⁾

진단은 자세한 병력 청취와 갑상샘을 포함한 두경부 전체의 신체 및 영상학적인 검사가 필요하며 초음파우도하 세침흡인 검사를 갑상샘과 미입 갑상샘의 의심 부위에서 시행하면 70% 이상 진단 정확성을 나타낸다.⁹⁾ 고해상도 초음파검사는 경부 종물이 있을 때 비침습적, 경제적이며, 또한 조직검사와 같이 시행할 수 있는 장점이 있다.¹⁰⁾ 본 증례에서는 갑상샘에서 시행한 세침흡인 검사에서 베테스다 분류 III (ACUS)였고, 후두암이 확진되었다. 경부 종물의 크기는 1 cm 미만으로 술 전 후두암의 전이성 림프절로 의심되어 경부 종물에 대한 세포 검사는 시행하지 않았다.

원발성 이소성 갑상샘 암종과 전이성 이소성 갑상샘 암종을 감별하는 것은 매우 어렵지만, 다음의 경우에는 전자로 의심해 볼 수 있다. 이소성 갑상샘이 경부 외 혈관을 통하여 독립적으로 혈액공급을 받고 있거나, 환자에게 다른 암종의 병력이 없을 때 그리고 경부 수술의 병력 없이 정위 갑상샘이 없는 경우 등이다.¹¹⁾ 또

한 갑상샘 암종으로 진단된 측경부 림프절 주변의 정상 소견의 여포 조직(normal appearing follicular area)을 galectin-3, CK 19, HBME-1 등으로 면역 염색을 하면, 일차성 이소성 갑상샘 암종은 음성이며, 전이성 림프절은 양성을 보인다. 현재까지는 이러한 면역 염색법이 두 질환의 감별에 가장 신뢰할 수 있는 방법으로 알려져 있다.¹²⁾ 이외에도 적출된 모든 갑상샘(whole thyroid gland)을 1-2 mm 정도로 미세하게 잘라서 많은 표본을 만들어서 잠복암의 유무를 확인할 수 있다. 본 증례도 이와 같은 과정을 거쳐서, 일차성 이소성 갑상샘 암종으로 진단하였다.

본 증례의 영상학적인 특이 소견은 경부 level III 림프절의 양전자단층촬영의 표준 섭취 값이 후두암 병변의 것과 비교하여 현저히 낮았다는 점과 경부 전산화 단층촬영에서 일반적인 후두암의 전이성 림프절보다 조영증강이 되지 않았다는 점이다. 그러나, 이런 소견의 임상적 의미에 관한 적절한 참고문헌은 찾을 수 없었으며, 양전자단층촬영의 표준 섭취 값의 정도도 다른 암종으로부터의 전이성 림프절과 원발성 암종의 여부를 구분할 수는 없다고 알려져 있다.¹³⁾

일반적인 유두상 갑상샘 암종에서의 경부 전이는 약 30-80% 정도로 보고되며, 측경부에서의 이소성 유두상 암종이 다른 경부 림프절로 전이할 수 있는 확률은 약 8%로 보고된다.⁷⁾ 예후는 갑상샘에서 발생한 유두상 암종과 비슷하여, 양호한 것으로 알려져 있으나, 지속적인 추적 관찰이 필요하다.¹⁴⁾

최근의 보고들은 갑상샘에서 원발 병소가 발견되지 않은 이소성 갑상샘 암종이라 할지라도, 수술적으로 적출한 갑상샘을 병리학적으로 자세히 관찰하면 대부분 원발 병소를 발견할 수 있다는 주장도 많다.¹⁵⁾ 따라서 보고된 증례들에서의 치료는 대부분 미입 갑상샘 암종이 존재하는 동측의 선택적 경부 청소술과 갑상샘이 정상이라도 전갑상샘절제술을 시행한 후 방사성요오드 동위원소 치료를 시행하였다.¹⁵⁾

저자들은 술 전 영상 및 임상 소견에서 후두암의 경부전이로 오인된 원발성 미입 유두상 갑상샘 암종을 경험하였고, 향후 다기관 연구를 통한 유사 증례를 채집하여, 전이성 갑상샘 암종과 비교되는 임상적 특징 및 표준 치료 방침에 대한 추가 연구가 필요하다고 사료된다.

중심 단어: 미입 갑상샘, 유두상 암종.

References

- 1) Paresi RJ Jr, Shah D. Hashimoto's thyroiditis presenting as an enlarging submandibular mass in a patient with a lingual thyroid. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2005;132(5):806-8.
- 2) Huang TS, Chen HY. Dual thyroid ectopia with a normally located pretracheal thyroid gland: case report and literature review. *Head Neck* 2007;29(9):885-8.
- 3) Kang JH, Choi KM, Kim YJ, Kim SW. A case of anaplastic carcinoma arising ectopic thyroid. *Korean J Head Neck Oncol* 2009;25(2):153-5.
- 4) Mansberger AR Jr, Wei JP. Surgical embryology and anatomy of the thyroid and parathyroid glands. *Surg Clin North Am* 1993;73(4):727-46.
- 5) De Felice M, Di Lauro R. Thyroid development and its disorders: genetics and molecular mechanisms. *Endocr Rev* 2004;25(5):722-46.
- 6) Frantz VK, Forsythe R, Hanford JM, Rogers WM. Lateral aberrant thyroids. *Ann Surg* 1942;115(2):161-83.
- 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) Barber TW, Lee ST, Lim E, Lim HK, Scott AM. Benign ectopic multinodular thyroid tissue in the submandibular region with a coexistent normotopic multinodular thyroid gland harboring papillary thyroid cancer. *Clin Nucl Med* 2010;35(8):618-9.
- 9) Maceri DR, Babyak J, Ossakow SJ. Lateral neck mass. Sole presenting sign of metastatic thyroid cancer. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1986;112(1):47-9.
- 10) Ohnishi H, Sato H, Noda H, Inomata H, Sasaki N. Color Doppler ultrasonography: diagnosis of ectopic thyroid gland in patients with congenital hypothyroidism caused by thyroid dysgenesis. *J Clin Endocrinol Metab* 2003;88(11):5145-9.
- 11) Shah BC, Ravichand CS, Juluri S, Agarwal A, Pramesh CS, Mistry RC. Ectopic thyroid cancer. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 2007;13(2):122-4.
- 12) Cabibi D, Cacciatore M, Guarnotta C, Aragona F. Immunohistochemistry differentiates papillary thyroid carcinoma arising in ectopic thyroid tissue from secondary lymph node metastases. *Thyroid* 2007;17(7):603-7.
- 13) Brindle R, Mullan D, Yap BK, Gandhi A. Thyroid incidentalomas discovered on positron emission tomography CT scanning - Malignancy rate and significance of standardised uptake values. *Eur J Surg Oncol* 2014;40(11):1528-32.
- 14) Shaha AR, Shah JP, Loree TR. Patterns of nodal and distant metastasis based on histologic varieties in differentiated carcinoma of the thyroid. *Am J Surg* 1996;172(6):692-4.
- 15) Seven H, Gurkan A, Cinar U, Vural C, Turgut S. Incidence of occult thyroid carcinoma metastases in lateral cervical cysts. *Am J Otolaryngol* 2004;25(1):11-7.