

갑상선 잔류물에서 발생하여 성대 마비를 유발한 원발성 갑상선 유두암 1예

가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실

나미선, 이용주, 고기범, 조정해

A Case of Primary Papillary Thyroid Cancer That Caused Vocal Cord Palsy Arising from Thyroid Rest

Mi-Sun Na, Yong-Joo Lee, Gi-Beom Ko and Jung-Hae Cho

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

Thyroid rest is isolated deposit of normal thyroid tissue arising in the thyrothymic tract below the lower pole of thyroid gland. Malignant transformation of thyroid rest is very rare. We report an extremely rare case of papillary carcinoma arising from thyroid rest in a 56-year-old male. He presented with hoarseness due to vocal cord palsy. Paratracheal mass in the upper mediastinum was identified by the cause of vocal cord palsy on CT. During surgery, we identified that the mass invaded recurrent laryngeal nerve but had no connection to thyroid gland. Histopathologic examination revealed that the mass was primary papillary thyroid carcinoma and there was no evidence of malignancy in thyroid gland. The post-therapeutic I-131 whole body scan detected several focal hot uptake in lung and mediastinum, suggesting distant metastasis. We should have knowledge of developmental variations of thyroid gland such as thyroid rest and its malignant transformation.

Key Words: Thyroid rest, Vocal cord palsy, Thyroid cancer

서론

이소성 갑상선(ectopic thyroid)은 정상 갑상선이 위치하고 있는 2번째부터 4번째 기관지 연골의 전방 및 측방에 위치하고 있지 않은 갑상선조직을 말하며 갑상선이 하강하는 경로를 따라 어느 곳에도 존재가 가능하다.¹⁾ 주로 혀 기저부의 맹공(foramen cecum)에서부터 하경부까지 갑상선관(thyroglossal duct)의 주행을 따라 존재한다. 이소성 갑상선은 대부분 무증상이거나 촉진되는 양성 종양을 형성하지만 악성 변화는 드문 것으로 알려져 있다. 이소성 갑상선의 한 종류로 갑상

선 하극 아래의 갑상선관이나 상부 종격동에서 발견되는 정상 갑상선조직을 갑상선 잔류물(thyroid rest)이라고 한다.²⁾ 수술 중 빈번히 발견할 수 있으며 이와 같은 개념을 미리 인식하고 있지 않으면 갑상선과 종종 떨어져 있기 때문에 전이성 림프절이나 부갑상선으로 혼동할 수 있다.

갑상선암은 갑상선 내 종괴에 대한 초음파유도하 세침흡인검사로 대부분 진단이 되지만 간혹 경부의 전이성 림프절로 먼저 발견이 되어 원발부위에서 갑상선암을 확인하는 경우도 있다. 경부 종괴가 갑상선암의 림프절 전이로 의심되는 경우에는 초음파 등의 영상학적 검사에서 갑상선 내의 원발 병변이 뚜렷이 발견되지

Received July 17, 2015 / Revised September 7, 2015 / Accepted October 21, 2015

Correspondence: Jung-Hae Cho, MD, PhD, Department of Otolaryngology - Head & Neck Surgery, St. Vincent Hospital, The Catholic University of Korea, 93-6 Ji-dong, Paldal-gu, Suwon 16247, Korea

Tel: 82-31-249-8306, Fax: 82-31-253-3752, E-mail: jhchomd@catholic.ac.kr

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.

않더라도 일반적으로 수술 후 병리조직검사에서 갑상선의 원발 병소가 확인되어 갑상선암으로 확진된다.³⁾ 따라서 전이성 림프절이 의심되면 갑상선전절제술과 경부 종괴가 있는 구역을 포함한 경부 림프절절제술이 필요하며, 수술 후 갑상선의 면밀한 병리 조직검사를 하게 된다.⁴⁾ 그러나 갑상선에 원발암이 발견되지 않는 경우도 매우 드물게 보고되고 있다.^{1,5,6)}

최근 저자들은 기관 주위 갑상선 잔류물에서 발생하여 성대 마비를 유발한 원발성 갑상선 유두상암 1예를 치험하였기에 보고하는 바이다.

증 례

56세 남자 환자가 1개월 전부터 갑자기 발생한 쉼 목소리를 주소로 내원하였다. 신체 검진에서 촉진되는 경부 종물은 없었으며 후두 내시경에서 좌측 성대 마비가 관찰되었다. 경부 컴퓨터단층촬영(computed tomography, CT)에서 좌측 기관주위에 1.5 cm 크기의 경계가 분명하면서 변연의 조영 증강을 보이는 저밀도의 종괴가 관찰되어 전이성 림프절의 반회후두신경 침범에 의한 성대마비를 의심하였다(Fig. 1A, B). 경부 초음파에서 갑상선 내 종물은 확인되지 않았고 좌측 기관 주위에서 갑상선과 떨어져 있는 1.2×1.5×1.4 cm 크기의 경계가 명확한 저에코성 종괴가 확인되어 세침흡인 검사를 시행하였다(Fig. 1C). 전반적으로 비전형세포가 보이면서 핵고랑(nuclear grooving)이 있는 상피모양 세포(epithelioid cell)가 보여 림프절보다는 갑상선의 악성 병변일 가능성이 있다고 보고되었다. 초음파 및 CT 등의 영상 검사에서 갑상선 내에 악성을 시사하는 병변이 전혀 보이지 않고 정상 갑상선과 떨어져 있어서

중심 경부의 갑상선 이소성 조직에서 발생한 갑상선암을 의심하였다. 수술은 경부 절개를 통하여 접근하였고 먼저 수술 전 발견되었던 좌측 기관주위 종괴를 확인하였다. 수술 시에도 종괴는 갑상선과 떨어져 있었으며 좌측 반회후두신경을 에워싸면서 침범하고 있었다. 종괴 일부를 떼어 동결절편 검사 확인 결과 갑상선 유두상암으로 진단되어 종괴와 함께 침범된 반회후두신경을 일괄로 절제하였다. T4a 병기로 확인되어 수술 후 방사성요오드 치료가 필요할 것으로 사료되어 갑상선전절제술 및 좌측 중심경부 림프절 수술을 시행하였다. 절단된 반회후두신경은 경신경고리(ansa cervicalis)와 단단문합하는 신경재지배술을 시행하고 수술을 마쳤다. 병리조직검사에서 갑상선 전체를 2차에 걸쳐 면밀하게 관찰하였으나 악성 결절은 발견되지 않았다. 좌측 기관주위 종괴 전체가 갑상선유두상암종이 관찰되었으나 정상 림프절 구조가 보이지 않는 점을 종합하여 볼 때, 이 검체의 병변을 전이성 림프절보다는 원발성 갑상선암으로 보는 것이 합당하다는 병리 결과를 받았다. 중심경부 림프절에서는 4개의 검체 중 1개의 림프절에서 전이가 관찰되었다. 환자는 수술 5주 후 방사성요오드 치료(¹³¹I, 100 mCi)를 받았으며, 1주 뒤 시행한 전신 스캔에서 양측 폐에 정도의 미만성 요오드 섭취가 보였고 우측 폐문, 좌측 상부 종격동, 좌측 쇄골 상부에 국소적인 요오드 섭취가 관찰되었다(Fig. 2). 수술 후 환자가 지속적으로 발성 곤란을 호소하여 술 후 2개월에 calcium hydroxylapatite를 이용한 성대주입술을 시행하였다. 수술 7개월 후 촬영한 경부 CT에서 이전 수술 부위에 재발이나 림프절 전이가 없었으며 환자의 주관적인 목소리가 호전을 보였고 음성 검사에서도 정상적인 음향학적 수치가 관찰되었다. 현재 폐 및

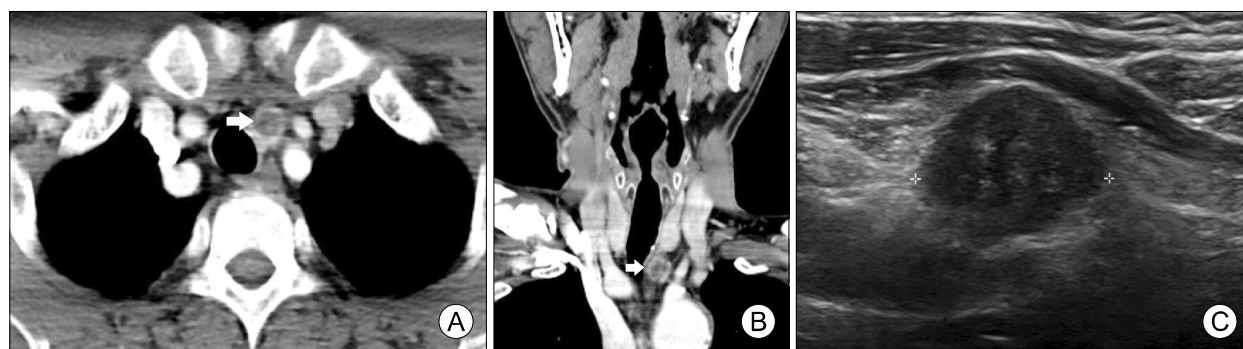


Fig. 1. Preoperative imaging studies. (A) Axial CT scan showing an about 1.5-cm-sized well defined mass with peripheral enhancement in left upper paratracheal area (arrow). (B) Coronal CT scan showing well-encapsulated mass separated from main thyroid gland (arrow). (C) Ultrasonographic image showing about 1.2×1.5×1.4 cm sized hypoechoic mass in the left paratracheal area.

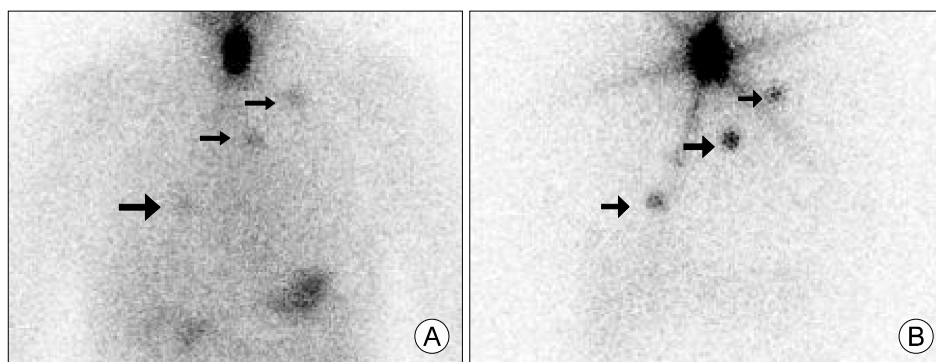


Fig. 2. Post-therapeutic I-131 whole body scan, (A) Whole body scan with I-131 with 100 mCi at 2 days after administration showing multiple radioactive iodine uptakes at right hilar, left superior mediastinum and left supraclavicular region (arrows). (B) Whole body scan at 7 days after administration showing more intensive radioactive iodine uptake at the same region (arrows) compared with whole body scan at 2 days after administration.

종격동 림프절 전이 의심 하에 추가 방사성요오드 치료를 계획하며 추적관찰 중이다.

고 찰

갑상선 내 일차적 병소가 없으면서 경부 종괴에서 갑상선 암종이 관찰되는 예는 매우 드물다. 이를 설명하는 가설은 첫째, 이소성 갑상선조직에 악성 변환이 일어났거나, 둘째, 원발성 갑상선 미세암종이 부적절한 절편에 의해 발견되지 않았거나, 셋째, 원발성 갑상선 미세암종이 자연 퇴행된 경우이다.⁴⁾ 이 중 본 증례는 이소성 갑상선조직의 악성 변화 때문으로 추정된다.

이소성 갑상선조직은 태생기 갑상선의 하강 과정을 따라 발생하며 신체의 어느 부위에나 존재할 수 있다.⁷⁾ 발생위치에 따라 전경부, 측경부, 종격동, 복부, 골반으로 분류할 수 있고 이중 전경부 특히 설갑상선이 약 90%를 차지한다.^{8,9)} 이들은 임상적으로 무증상의 경부 종괴에서부터 주위 구조물과의 관계에 따라 증상을 유발할 수 있으며 병리학적으로도 악성의 형태로 나타날 수 있다. 이소성 갑상선에서 비롯된 원발성 갑상선 암종은 드물게 발생된다고 알려져 있으며 주로 갑상선관 낭종의 악성 변화이고 그 외 설갑상선, 외측 미입 갑상선(lateral aberrant thyroid), 종격동, 난소갑상선종(struma ovarii)에서도 보고되었다.⁷⁾ 이들 대부분은 유두상 갑상선 암종이었으며 여포상암종이나 편평상피세포암 등도 보고된 바가 있다.¹⁰⁾

이소성 갑상선의 한 종류로서 정상 갑상선의 발생학적 하강 과정에서 갑상선조직이 확장되거나 연장되어 갑상선의 하극 아래로 갑상선인대(thyrothymic ligament) 주위 혹은 전상부 종격동 내에 갑상선 잔류물이

존재할 수 있다. Sackett 등²⁾은 갑상선 잔류물을 정상 갑상선과의 관계에 따라 크게 4가지 등급으로 분류하였다. 1등급은 정상 갑상선의 아래 경계에서 단순 돌출된 형태, 2등급은 좁은 유경(pedicle)으로 갑상선과 연결된 형태, 3등급은 섬유혈관대(fibrovascular band)로 갑상선과 연결된 형태, 마지막으로 4등급은 갑상선과 전혀 연결이 없는 형태로 분류하였다. 연구 결과에 따르면 전체 갑상선절제술 환자의 약 46%에서 갑상선 잔류물이 발견되었다고 보고하였으며 본 증례처럼 4등급에 해당되는 형태는 20% 관찰되었다. 그러나 Sackett 등²⁾의 보고에서는 본 증례처럼 갑상선 잔류물에서 갑상선암이 발생한 경우는 없었다. 본 증례는 전종격동의 기관 주위 종괴, 즉 갑상선과 떨어져 존재하는 이소성 갑상선인 갑상선 잔류물이 악성 변환이 되어 원발성 갑상선유두상암이 된 것으로 추정되었다. 특히 갑상선암의 중심 림프절 전이가 빈번하기 때문에 수술 전에는 원발성 갑상선암 이라기보다는 전이성 경부 림프절에 의한 반회후두신경 침범과 구분하기 어려웠다. 따라서 영상학적 검사뿐만 아니라 수술 시에도 갑상선 잔류물이 림프절이나 부갑상선으로 오인되기 쉽기 때문에 주의가 필요하다고 할 수 있다.

이소성 갑상선조직을 진단하는 가장 좋은 방법은 방사성 테크네튬이나 요오드를 이용하는 스inti그래피(scintigraphy)이다.⁸⁾ 그 외 초음파, CT 및 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI) 검사가 이소성 갑상선조직의 위치와 크기를 파악하는 데 도움이 된다.⁸⁾ 이소성 갑상선조직에서 원발성 갑상선암을 진단하는 것은 매우 어려울 수 있다. 우선 감별해야 하는 질환으로는 본 증례에서처럼 중심경부 림프절 전이로 오인되는 경우이다. 초음파유도하 세침흡인생검이 악성과 양성

을 감별할 수 있는 가장 중요한 검사이지만 세침흡인으로 얻어진 검체 만으로는 이소성 갑상선인지 림프절에서 기원한 것인지 완전히 감별하기가 어렵다. 또한 종격동처럼 접근이 어렵거나 주위에 인접한 대혈관의 손상 가능성이 있는 경우에는 시행에 제한이 있다.¹¹⁾ 따라서 수술 후 면밀한 조직검사와 수술 전 시행한 영상학적 검사를 토대로 진단을 내릴 수 있다. 본 증례에서도 초음파유도하 세침흡인검사 및 경부 CT를 촬영하였으며 갑상선과 떨어져 있으면서 림프절보다는 갑상선에서 유래한 세포가 관찰되어 이소성 갑상선에 의한 악성 변환을 감별진단에 포함할 수 있었다. 그러나 신티그래피가 이소성 갑상선조직과 관련된 갑상선기능 이상에는 유용할 수 있으나 악성에서는 큰 유용성이 없기 때문에 본 증례에서는 시행하지 않았다.

갑상선 잔류물에 대한 임상적인 중요성은 이미 잘 알려진 갑상선의 추체엽과 비슷하다.¹²⁾ 갑상선전절제술 시 갑상선 잔류 조직이 간과되거나 부갑상선으로 오인되어 남겨 놓게 되어 수술 후 티로글로불린 수치가 지속적으로 측정되고 스캔에서 방사선이 섭취되는 원인이 된다고 알려져 있다. 한편 본 증례는 특이하게도 갑상선 잔류물에서 원발성 갑상선유두상암이 발생하였고 해부학적인 위치상 반회후두신경이 바로 인접하고 있어 신경을 초기에 침범하였다. 악성 종양에 의한 신경 침범이 이루어졌기 때문에 원발부가 1 cm 정도로 비교적 작았지만 폐로 원격전이가 발생하였다고 추정할 수 있었다.

갑상선 잔류물에서 발생한 원발성 갑상선암에 대한 최적의 치료법에 대해서는 발생 빈도가 너무 적기 때문에 아직까지 도출된 공통된 의견은 없다. 본 증례처럼 갑상선 잔류물에서 갑상선암이 발생하여 반회후두신경을 침범하여 수술 전에 동측의 성대 마비가 후두내시경을 통해 확인되면 갑상선전적출술과 정상 절제연을 확보하기 위해 종괴와 반회후두신경을 일괄로 완전 적출을 하는 수술을 시행하고 추가로 방사성요오드 치료가 필요하다. 한편 이와 같은 술식 이후에는 영구적인 성대 마비가 필연적으로 오기 때문에 음성 장애로 인한 환자의 삶의 질을 향상시키기 위해서는 후두내주입술, 후두 골격수술, 후두신경 재지배술 등의 음성 수술이 고려되어야 한다. 환자의 상황과 의사의 술기에 따라 결정할 수 있으며 본 환자에서는 수술 시 경신경고리를 이용하여 후두신경 재지배술을 시행하였다. 경신경고리를 이용해 후두내근에 필수적인 저진폭의 휴식기 긴장도를 유지할 수 있었고 이어서 성대

내전술인 후두내주입술을 함께 시행하여 정상에 가까운 음성으로 회복할 수 있었다. 그러나 갑상선 잔류물에만 암이 있고 반회후두신경 침범이 없을 경우에는 신경을 보존하고 갑상선도 보존할 수 있는 보존적 치료도 가능할 것으로 보인다. 그러나 이와 같이 갑상선 잔류 조직에 암이 발생한 경우가 극히 드물기 때문에 향후 이에 대한 추가적인 연구가 필요할 것으로 사료된다.

중심 단어: 잔류 갑상선, 성대 마비, 갑상선암.

References

- 1) Wang Z, Qiu S, Eltorky MA, Tang WW. *Histopathologic and immunohistochemical characterization of a primary papillary thyroid carcinoma in the lateral cervical lymph node. Exp Mol Pathol* 2007;82(1):91-4.
- 2) Sackett WR, Reeve TS, Barraclough B, Delbridge L. *Thyroid-thymic thyroid rests: incidence and relationship to the thyroid gland. J Am Coll Surg* 2002;195(5):635-40.
- 3) De Jong SA, Demeter JG, Jarosz H, Lawrence AM, Paloyan E. *Primary papillary thyroid carcinoma presenting as cervical lymphadenopathy: the operative approach to the "lateral aberrant thyroid". Am Surg* 1993;59(3):172-6; discussion 176-7.
- 4) Fliegelman LJ, Genden EM, Brandwein M, Mechanick J, Urken ML. *Significance and management of thyroid lesions in lymph nodes as an incidental finding during neck dissection. Head Neck* 2001;23(10):885-91.
- 5) Cappellani A, Di Vita M, Zanghi A, Di Stefano B, La Porta D, De Luca A, et al. *A case of branchial cyst with an ectopic thyroid papillary carcinoma. Ann Ital Chir* 2004;75(3):349-51; discussion 352.
- 6) Kim KH, Kim HK, Kim JW, Lee SW. *One case of a primary papillary thyroid carcinoma in the intrathoracic lymph node. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2011;54(4):300-3.
- 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) Noussios G, Anagnostis P, Goulis DG, Lappas D, Natsis K. *Ectopic thyroid tissue: anatomical, clinical, and surgical implications of a rare entity. Eur J Endocrinol* 2011;165(3):375-82.
- 9) Batsakis JG, El-Naggar AK, Luna MA. *Thyroid gland ectopias. Ann Otol Rhinol Laryngol* 1996;105(12):996-1000.
- 10) Tucci G, Rulli F. *Follicular carcinoma in ectopic thyroid gland. A case report. G Chir* 1999;20(3):97-9.
- 11) Ramos-Gabatin A, Watzinger W. *Fine needle aspiration and cytology in the preoperative diagnosis of branchial cyst. South Med J* 1984;77(9):1187-9.
- 12) Sinos G, Sakorafas GH. *Pyramidal lobe of the thyroid: anatomical considerations of importance in thyroid cancer surgery. Oncol Res Treat* 2015;38(6):309-10.