

갑상선 여포선암을 동반한 갑상선 이형성증 1예

고신대학교 복음병원 내과, 병리학교실¹, 외과학교실²

김부경 · 정현주 · 김예나 · 최영식 · 박요한 · 장희경¹ · 김정훈²

A Case of Follicular Thyroid Carcinoma Associated with Hemiagenesis of Thyroid Gland

Bu-Kyung Kim, Hyun-Joo Jung, Ye-Na Kim, Young-Sik Choi,
Yo-Han Park, Hee-Kyoung Chang¹, Jeong Hoon Kim²

Department of Internal Medicine, Department of Pathology¹, Department of Surgery², Kosin University College of Medicine

ABSTRACT

Thyroid hemiagenesis is a rare congenital anomaly, in which one thyroid lobe fails to develop. Thyroid hemiagenesis is associated with thyroid diseases such as Graves' disease, Hashimoto's thyroiditis, colloidal goiter and thyroid follicular and papillary cancer. A 53-year-old female patient was diagnosed with a thyroid nodule on health examination. A 99mTc pertechnetate thyroid scan showed absent uptake in the left lobe and cold nodule on the right lobe of thyroid gland. By ultrasonography, we found hemiagenesis in the left thyroid gland and an irregular shaped thyroid nodule on the right lobe of thyroid gland. We performed ultrasonography guided fine needle aspiration and cytologic analysis showed indeterminate nature. Thyroidectomy was performed and finally diagnosed follicular carcinoma of thyroid gland. The authors report this case with a literature review. (*J Korean Endocr Soc* 25:46~49, 2010)

Key Words: Follicular cancer, Thyroid hemiagenesis

서 론

선천적으로 갑상선 전체가 형성되지 않는 경우를 무갑상선증이라 하며, 갑상선 협부의 유무와 관계없이 갑상선의 한쪽 엽이 선천적으로 발생하지 않은 경우를 이형성증이라 한다[1]. 유병률은 0.02%로 매우 드물며[2], 이러한 낮은 유병률은 갑상선 이형성증의 경우 갑상선 호르몬의 증가나 감소로 인한 증상이 동반되거나, 갑상선종이 있는 경우에 진단 받을 수 있기 때문이다[3]. 그러므로 이형성증은 건강검진 시 시행한 초음파검사에서 발견되거나 동위원소 검사에서 발견되는 경우가 많다. 이형성증 환자의 대부분은 임상적인 문제가 없으나, 갑상선호르몬 이상이 동반되거나, 암이 동반될 경우는 치료가 요구된다[4]. 갑상선 이형성증에 동반되는 질환으로는 Graves병[5], 이급성 갑상선염[6], 유두암[7] 등

이 알려져 있다. 이형성증에 동반된 여포암은 매우 드물게 보고되어 있으며[8], 국내에는 이형성증이 5예 보고되어 있고 유두암과 동반된 예는 2예 보고되어 있으나[9~13] 여포암과 동반된 예는 보고된 바가 없다.

저자들은 갑상선 이형성증 환자에서 동반된 갑상선 여포암 1예를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 이 OO, 여자 56세

주 소: 건강검진에서 발견된 갑상선결절

현병력: 별다른 전신증상 없이 건강하였으며, 개인의원에서 건강검진상 시행한 갑상선 초음파 검사에서 갑상선 우엽에 결절이 발견되어 내원함.

과거력: 3년 전 자궁근종 수술을 받았음.

이학적 소견: 내원 당시 의식은 명료하였으며 전신 상태는 양호하였다. 활력 징후는 혈압 120/80 mmHg, 맥박수는

접수일자: 2009년 6월 22일

통과일자: 2009년 7월 18일

책임저자: 최영식, 고신대학교 복음병원 내과

75회/분, 호흡수는 20회/분, 체온은 36.5℃였다. 신체검사에서 경부축진상 갑상선 우엽에 1.5 cm 정도의 결절이 촉진되었으며, 결절은 경도가 약간 단단하였다. 경부림프절은 촉진되지 않았고, 그 외 다른 부위의 특이소견은 없었다.

검사실 소견: 입원 당시 말초혈액검사에서 백혈구 4,800/mm³, 혈색소 12.4 g/dL, 혈소판 353,000/mm³이었다. 혈청 생화학검사에서 BUN 17 mg/dL, 크레아티닌 0.9 mg/dL, 총 단백 6.9 g/dL, 알부민 4.1 g/dL, 총 빌리루빈 0.5 mg/dL, 알칼리성 포스파타제 596 IU, AST/ALT 22/14 IU/L였다. 갑상선 기능검사에서 T3 130.41 ng/dL (60~181 ng/dL), TSH

1.794 μ IU/mL (0.35~5.50 μ IU/mL), FT4 1.05 ng/dL (0.89~1.76 ng/dL)였다. 항티로글로불린항체 10 U/mL 이하였다.

갑상선 초음파검사: 갑상선 초음파검사에서 좌엽은 보이지 않았고, 우엽은 전반적으로 불균질한 저음영에코 소견을 보였으며, 1.2 × 1.2 cm 크기의 결절이 관찰되었으며, 결절 변연부는 불규칙 하였으며, 석회화가 관찰되었다. 협부는 우엽과 연결되어 있었다(Fig. 1).

갑상선 동위원소검사: ^{99m}TcO₄ 갑상선 스캔 검사상 갑상선 좌엽은 보이지 않았고, 우엽과 협부가 연결되어 전형적인

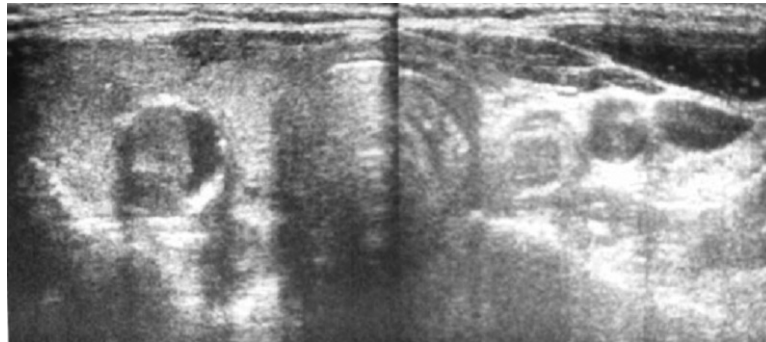


Fig. 1. Ultrasound examination of the thyroid gland in transverse section: Visualization of the right lobe with a hypoechoic nodule with calcified and irregular margin whereas thyroid tissue on the left side is not observed.

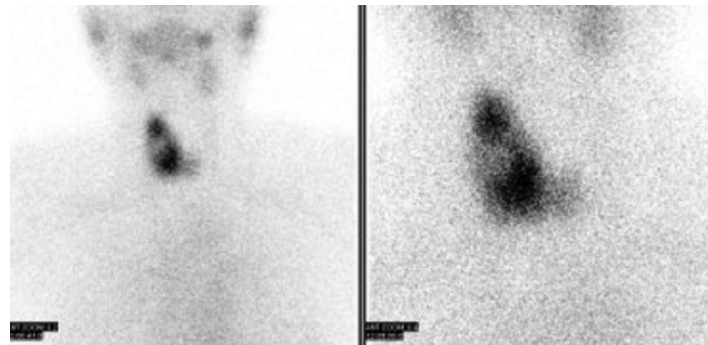


Fig. 2. Absence of ^{99m}Tc in pertechnetate uptake in left lobe that is compatible with thyroid hemiagenesis. A hypoechoic nodule is also seen in the right lobe of thyroid.

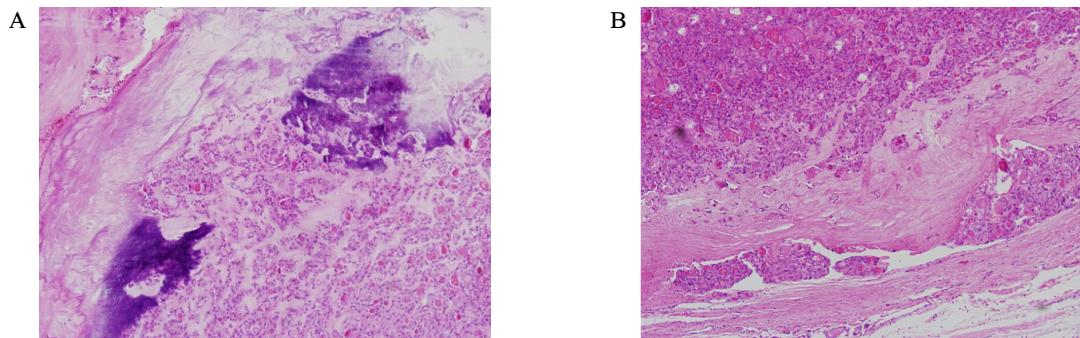


Fig. 3. A. The microscopic finding shows tumor; follicular neoplasm invasion of severely calcified capsule (H&E stain, ×40), B. The microscopic finding shows tumor of angioinvasion (H&E stain, ×100).

Hockey-Stick 소견이 관찰되었고, 우엽에서 냉결절이 관찰되었다(Fig. 2).

임상경과: 갑상선결절에 대해 초음파 유도 하 세침흡인검사를 시행하였으며, 그 결과 진단이 중간형(indeterminate)으로 나왔다. 그러나 초음파검사상 결절 변연부의 변연부가 불규칙하였고, 석회화가 관찰되어 먼저 결절제거술(nodulectomy)을 시행하였다. 수술 후 병리조직의 크기는 $2.3 \times 2.0 \times 1.5$ cm 크기였으며, 병리소견상 갑상선세포가 석회화된 피막을 침범한 여포암의 소견을 보였다(Fig. 3). 여포암으로 진단되어 10일 후에 완결갑상선절제술(completion thyroidectomy)를 시행하였다. 수술 시 종양은 갑상선내에 국한되었으며, 주변의 림프절 침윤과 원위부 혈관 침범은 보이지 않았고, 환자의 술 후 병기는 2기였다. 수술 후 방사성 욱소 치료를 시행하였고, 현재까지 재발하지 않고 갑상선 호르몬을 투여하며 치료 중이다.

고 찰

갑상선 이형성증은 매우 드문 선천성 갑상선기형으로 1895년 Marshall에 의해 처음 보고된 이래[14], 현재 유병률이 약 0.02% 정도로 보고되고 있다. 갑상선 이형성증은 주로 여자에서 남자 보다 3배 정도 많이 발생하며, 좌엽이 없는 경우가 80%, 협부(isthmus)가 없는 경우는 44~50% 정도 이다[15]. 본 증례의 경우에도 여자이며, 좌엽에서 발생하였다.

갑상선은 내배엽에서 기원하며, 태생 3주에 원시 인두 바닥에서 관모양의 내배엽 침윤이 관찰되기 시작한다. 이 인두 바닥은 성인에서 혀의 맹공에 해당하며, 원시 갑상선은 계실 모양을 형성하며 갑상선관에 연결되어 인두 앞에서 아래쪽으로 자라서 태생 30일 쯤에는 두 개의 엽 형태를 취하게 된다. 갑상선 이형성증의 발생원인은 위에서 언급한 갑상선 발생 중 하강(descend) 때의 장애 인지, 엽 형태를 취할 때의 장애 인지 아직 밝혀져 있지 않다. 그러나 대부분의 환자에서 정상적으로 형성되어 있는 엽에서 보상적 증식 소견을 보이지 않는 것으로 보아 하강장애 보다는 엽형성의 장애로 유추할 수 있다[16]. 드물게 쌍둥이 및 자매에서 동시에 발생하는 경우가 있는 것을 볼 때 유전적인 요인도 관여할 것으로 생각된다. 최근 갑상선형성과 하강에 관련된 유전자인 갑상선전사인자-1, 2 (thyroid transcription factor, TTF-1, 2)가 갑상선 선천성기형과 관련된 유전자로 보고됨에 따라 향후에는 갑상선 이형성증에 이 유전자의 돌연변이와의 관련성도 연구가 될 것으로 기대된다[17].

갑상선 이형성증은 갑상선스캔 검사에서 발견되는 경우가 흔하고, 협부가 소실되지 않은 경우에는 특징적인 “하키 스틱(hockey stick)” 같은 모양을 보여 진단이 용이하나 한 쪽 엽과 협부가 소실되어 하키스틱 소견이 관찰되지 않는

경우는 자율기능성결절이나, 편측을 침범한 염증성 및 종양성 병변, 엽절제술로 인한 이차적 결여 등의 여러 임상적 상황은 갑상선스캔에서 갑상선 이형성증과 감별이 요한다. 그러므로 갑상선스캔 검사에서 갑상선 이형성증이 의심될 경우에는 다른 부가적인 진단방법을 이용하여 갑상선의 해부학적 이상 유무에 대한 확진을 하여야 한다. CT나 MRI도 진단에 이용될 수 있으나, 갑상선 초음파 검사가 비용 효과적이며, 쉽게 이용이 가능하고, 방사선 노출도 없어 유용하게 이용되고 있다[16]. 또한 결절이 발견될 경우에는 암의 여부를 확인하기 위해 세침검사를 시행하여야 한다. 본 증례의 경우는 세침흡인세포검사를 시행하였으나 진단이 애매하게 나왔다. 갑상선암의 진단에 세침검사도 중요하지만 초음파검사상에서 석회화, 불규칙한 변연부, 저에코 음영 등의 악성을 시사하는 소견도 중요하다. 본 증례의 경우 갑상선이 한쪽만 있는데다가 초음파 유도하 세침검사상에서 세포검사도 중간형으로 판정되어 만약 수술 후 악성이 아닐 경우 환자가 겪게 될 상황으로 고려할 때 쉽게 수술을 결정하기는 어려운 증례였으나 초음파 검사상에서 석회화 양상이나, 저에코 음영, 불규칙한 변연부 등의 소견이 저명하여 수술을 권유하여 진단되었다.

결 론

저자들은 갑상선 이형성증 환자에서 동반된 여포암 1례를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Hamburger JI, Hamburger SW: Thyroidal hemiagenesis. Report of a case and comments on clinical ramifications. Arch Surg 100:319-320, 1970
2. Shabana W, Delange F, Freson M, Osteaux M, De Schepper J: Prevalence of thyroid hemiagenesis: ultrasound screening in normal children. Eur J Pediatr 159:456-458, 2000
3. Bando Y, Nagai Y, Ushiogi Y, Toya D, Tanaka N, Fujisawa M: Development of Graves' hyperthyroidism from primary hypothyroidism in a case of thyroid hemiagenesis. Thyroid 9:183-187, 1999
4. Marwaha RK, Khanna CM, Gupta RK, Sharma R: Hemiagenesis associated with chronic lymphocytic thyroiditis. J Assoc Physicians India 38:507-508, 1990
5. Rashid HI, Yassin J, Owen WJ: A case of Graves' disease in association with hemiagenesis of the thyroid gland. Int J Clin Pract 52:515-516, 1998
6. Shibutani Y, Inoue D, Koshiyama H, Mori T: Thyroid

- hemiagenesis with subacute thyroiditis. *Thyroid* 5: 133-135, 1995
7. Khatri VP, Espinosa MH, Harada WA: Papillary adenocarcinoma in thyroid hemiagenesis. *Head Neck* 14:312-315, 1992
8. McHenry CR, Walfish PG, Rosen IB, Lawrence AM, Paloyan E: Congenital thyroid hemiagenesis. *Am Surg* 61:634-638, 1995
9. Han HS, Kim JW, Suh KS, Kim JS, Yoo HJ: A case of thyroid hemiagenesis. *Korean J Med* 38:137-140, 1990
10. Kim MR, Chung CH, Lim SK, Kim KR, Lee HC, Huh KB: A case of thyroid hemiagenesis with primary myxedema. *J Korean Endocr Soc* 5:149-154, 1990
11. Han JH, Cha BY, Son HY, Ahn YB, Lee KW, Kang SK, Oh SJ, Na JS, Jang SA, Kang MI: A case of thyroid hemiagenesis with papillary adenocarcinoma. *J Korean Endocr Soc* 9:385-389, 1994
12. Park SG, Ryu JW, Myung NH: Thyroid hemiagenesis and ectopic thymus at thyroid bed, and papillary cancer in opposite thyroid lobe with hyperthyroidism. *J Korean Surg Soc* 58:433-437, 2000
13. Ko BS, Kim KC, Bae HY: Thyroid hemiagenesis. *J Korean Surg Soc* 65:69-71, 2003
14. Marshall CF: Variations in the form of the thyroid gland in man. *J Anat Physiol* 29:234-239, 1895
15. Melnick JC, Stemkowski PE: Thyroid hemiagenesis (hockey stick sign): a review of the world literature and a report of four cases. *J Clin Endocrinol Metab* 52:247-251, 1981
16. Karabay N, Comlekci A, Canda MS, Bayraktar F, Degirmenci B: Thyroid hemiagenesis with multinodular goiter: a case report and review of the literature. *Endocr J* 50:409-13, 2003
17. Clifton-Bligh RJ, Wentworth JM, Heinz P, Crisp MS, John R, Lazarus JH, Ludgate M, Chatterjee VK: Mutation of the gene encoding human TTF-2 associated with thyroid agenesis, cleft palate and choanal atresia. *Nat Genet* 19:399-401, 1998