

소아와 성인 갑상선관 낭종 환자군의 비교

차의과대학교 분당차병원 유방·갑상선암센터 외과

조주현 · 전학훈 · 강봉수 · 김승기

Single Institutional Experience of Thyroglossal Duct Cyst: A Comparison between Children and Adults

Ju Hyun Cho, Hak Hoon Jun,
 Bong Su Kang, Seung Ki Kim

Department of Surgery, CHA Bundang
 Medical Center, Breast and Thyroid
 Cancer Center, CHA University,
 Seongnam, Korea

Purpose: Thyroglossal duct cyst (TGDC) is known to be the most common midline neck mass in children, but the adult population still has this abnormality. The most common symptom of TGDC is a simple neck mass, and differential diagnosis among other abnormalities is important. The aim of this study is to perform a retrospective view of TGDC in order to describe any differences in clinical features, diagnostic tools, treatment, and outcomes in children and adults who underwent surgery in a single institution, and to determine its clinical implications.

Methods: We performed a retrospective chart review on 75 pathologically diagnosed TGDC patients from 1995 to 2013 who were divided into two groups: children (≤ 18 years) and adults. Comparison analysis was performed for age, sex, site and location of cyst, size, diagnostic tool, surgical method, and postoperative outcome.

Results: Our study showed frequent occurrence of TGDC in adults. There was no significant sex, site, or location difference in the occurrence of TGDC in children and adults, however, the size of cyst in adults was larger than that in children (mean, 2.80 cm vs 2.15 cm) ($P < 0.001$). Four patients (5.3%) had postoperative recurrence of TGDC, and Sistrunk operation showed lower recurrence rate than excision (3.1% vs 18.2%) ($P < 0.040$). Two malignancy cases were identified postoperatively in adults.

Conclusion: Particularly in adults, the possibility of carcinoma would make it important to perform fine-needle aspiration for differential diagnosis. Sistrunk procedure will remain the treatment of choice for most TGDC patients considering recurrence risk.

Key Words: Thyroglossal duct cyst, Sistrunk operation, Children, Adult

중심 단어: 갑상선관 낭종, Sistrunk 수술, 소아, 성인

Received August 26, 2014,
 Revised September 26, 2014,
 Accepted October 13, 2014
 Correspondence: **Hak Hoon Jun**
 Department of Surgery, CHA Bundang
 Medical Center, Breast and Thyroid Cancer
 Center, CHA University, 59 Yatap-ro,
 Bundang-gu, Seongnam 463-712, Korea.
 Tel: +82-31-780-6257
 Fax: +82-31-780-5266
 E-mail: iamhacu@chamc.co.kr

서론

갑상선관 낭종(Thyroglossal duct cyst)은 소아에서 목의 정중선에 발생하는 가장 흔한 종괴로 알려져 있지만 Allard,⁽¹⁾ Tunkel과 Domenech⁽²⁾는 성인에서도 갑상선관 낭종이 흔히 발생하는 것으로 보고하고 있으며, 소아와 성인에서 이점점분포(bimodal distribution)를 보인다는 연구결과도 보고되고 있다.^(3,4) 갑상선관 낭종의 가장 흔한 증상인 단순 종괴를 토대로

정확한 진단을 내리기 위해서는 경부 종괴를 동반하는 다른 질환들과의 감별이 중요하다. 갑상선관 낭종에 대한 가장 적절한 치료로 널리 시행되고 있는 Sistrunk 수술은 1920년 Sistrunk⁽⁵⁾에 의해 처음 소개된 수술 방법으로, 수술 후 재발률을 감소시킬 수 있는 것으로 알려져 있다. 본 연구에서는 갑상선관 낭종으로 수술을 받은 소아와 성인 환자들의 임상적 특성, 진단 방법, 치료 및 그 결과에 대한 후향적 비교 연구를 시행하고 임상적인 의의를 알아보려고 한다.

방 법

1995년부터 2013년까지 분당차병원 외과 및 이비인후과에서 갑상선관 낭종 의증으로 진단을 받은 96명의 환자들의 의무기록에 대한 후향적 연구를 시행하였다. 그 중 추적관찰 과정에서 탈락되었거나(12명) 수술 후 조직검사상 다른 질환으로 진단된(표피낭 3명, 발육성 낭 2명, 비특이성 염종 2명, 유피낭 1명, 기관지낭 1명) 21명이 제외되었다. 수술 후 조직검사상 갑상선관 낭종으로 확진을 받은 75명이 최종 선정되었으며 18세 이하를 소아 집단으로, 18세 초과를 성인 집단으로 구분하였다. 나이, 성별, 낭종의 부위(site), 위치(location), 크기, 진단 방법, 수술 방법, 수술 후 결과 등에 대한 자료들이 분석을 위해 수집되었다. 통계학적 분석 방법으로 범주형 변수들은 카이제곱검증을, 연속형 변수들은 독립표본 t검정을 시행하였으며 SPSS 20.0 for Windows (SPSS, Inc., Chicago, IL)를 사용하였다. P 값이 0.05 보다 작을 때 통계적으로 유의한 것으로 간주하였다.

결 과

1) 나이와 성별

갑상선관 낭종으로 진단된 75명의 환자들 중 소아가 30명, 성인이 45명이었으며 연령 분포는 1세에서 68세까지였다. 소아 환자의 평균 나이는 6.5세, 성인 환자의 평균 나이는 42.6세였으며(Table 1), 전체 환자의 평균 나이는 28.2세였다. 6세 이전에 진단받은 환자가 17명(22.7%)이었으며, 성인 환자에서는 41세에서 50세 사이(10.7%)가 비교적 많았으며 60세 이상(5.3%)에

Table 1. Dermographics and clinical characteristics of patients in different age groups

	Children (n=30)	Adults (n=45)	P
Age			
Mean±SD	6.5±5.0	42.6±12.5	
Median	4	43	
Sex			0.450
Male	14 (46.7%)	25 (55.6%)	
Female	16 (53.3%)	20 (44.4%)	
Site			0.499
Middle	20 (66.7%)	28 (62.2%)	
Left	8 (26.7%)	10 (22.2%)	
Right	2 (6.7%)	7 (15.6%)	
Location			0.381
Suprahyoid	7 (23.3%)	6 (13.3%)	
Over hyoid	7 (23.3%)	16 (35.6%)	
Infrahyoid	16 (53.3%)	23 (51.1%)	
Size (cm)			0.001
Mean±SD	2.15±0.73	2.80±0.80	
Range	1.0~4.2	1.2~5.0	

SD = standard deviation.

서는 드물게 발생하는 것으로 나타났다(Fig. 1). 성인에서는 남성이 25명, 여성이 20명이었으며 소아에서는 남성이 14명, 여성이 16명이었다. 성별에 따른 두 집단 사이의 유의한 차이는 없었으며 환자 전체에서도 남성(52.0%)과 여성(48.0%)의 비율은 차이가 없었다(Table 1).

2) 부위(site), 위치(location) 및 크기

본 연구에서 갑상선관 낭종의 가장 흔한 임상적 증상은 목 정 중선에 만져지는 종괴(64.0%)인 것으로 나타났다. 낭종의 부위나 위치에 있어서 소아와 성인 집단에서 유의한 차이는 보이지 않았다(Table 1). 갑상선관 낭종의 크기는 소아에서 2.15 ± 0.73 cm (1.0~4.2 cm), 성인에서 2.80 ± 0.80 cm (1.2~5.0 cm)으로 성인에서 좀 더 컸으며 통계적으로 유의한 차이를 보였다($P < 0.001$).

3) 수술 전 검사

본 연구의 대상 환자들은 이학적 진찰, 초음파(ultrasonography), 세침흡인(fine-needle aspiration), 전산화단층촬영(computed tomography), 갑상선기능검사(thyroid function

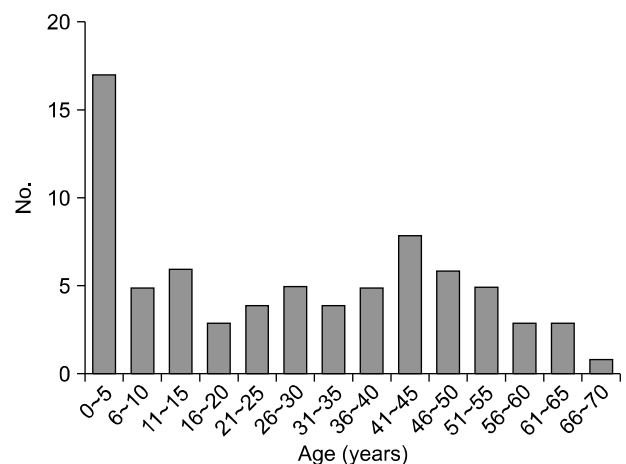


Fig. 1. Age distribution according to initial diagnosis of thyroglossal duct cyst.

Table 2. Diagnostic methods before operation

	Children (n=30)	Adults (n=45)
Ultrasonography	20 (66.7%)	27 (60.0%)
FNA	0	20 (44.4%)
Neck CT	11 (36.7%)	34 (75.6%)
Thyroid function test	2 (6.7%)	14 (31.1%)
Thyroid scan	8 (26.7%)	4 (8.9%)
Fistulography	0	1 (2.2%)
None	2 (6.7%)	2 (4.4%)

FNA = fine-needle aspiration; CT = computed tomography.

Table 3. Type of operation

	Children (n=30)	Adults (n=45)	P
Excision	5 (16.7%)	6 (13.3%)	0.689
Sistrunk	25 (83.3%)	39 (86.7%)	

test), 갑상선 스캔(thyroid scan), 누공조영술(fistulography) 등의 검사를 수술 전 시행받았다. 이학적 진찰 외에 다른 검사 없이 수술을 받은 환자가 4명(소아 2, 성인 2) 있었다. 성인에서 가장 많이 시행된 검사는 전산화단층촬영(75.6%)이었으며 소아에서는 초음파 검사(66.7%)가 가장 많이 시행되었다(Table 2). 소아군과 성인군에서 두 가지 검사 중 초음파만 시행받은 환자가 각각 17명/8명, 전산화단층촬영만 시행받은 환자는 8명/15명, 두 가지 검사를 모두 시행받은 환자는 3명/19명이었다. 누공조영술은 진단시 누공을 통한 분비물이 관찰되었던 1명의 성인 환자에 대해서만 시행되었다.

4) 수술 및 수술 후 결과

갑상선관 낭종의 수술 방법은 Sistrunk 수술과 단순 낭종절제술로 구분할 수 있다. 본 연구에서는 64명(85.3%)의 환자들이 Sistrunk 수술을 받았으며 11명(14.7%)이 단순 낭종절제술을 시행받았다(Table 3). Sistrunk 수술을 받은 환자의 비율은 소아와 성인 그룹 사이에서도 큰 차이가 없었다(83.3% vs. 86.7%). 수술 후에 주요한 합병증은 발생하지 않았다. 성인 환자군에서는 낭종의 재발이 없었으나 소아 환자군에서 4명(5.3%)의 재발이 보고되었으며 Sistrunk 수술과 단순 낭종절제술 후에 각각 2명씩의 재발이 있었다(Table 4). 수술 후 성인 환자군에서는 2명의 환자들이 조직학적 소견상 갑상선관 낭종에서 발생한 유두암(papillary carcinoma arising in TGDC)으로 진단되었다.

고 찰

갑상선관 낭종은 목의 선천성 기형의 70%를 차지하는 것으로 알려져 있지만(6) 어느 연령대에서도 발생할 수 있다. 갑상선관 낭종이 선천성 기형이기 때문에 보통은 소아에서 더 많이 발생할 것으로 여겨진다. 1982년에 1,316예를 대상으로 한 Allard(1)의 메타분석에 따르면 갑상선관 낭종이 소아에서 더 자주 발견되고 있지만 Ren 등,(3) Brousseau 등,(4) Lin 등(7)은 성인에서 더 많은 갑상선관 낭종 환자가 발생하는 것으로 보고하였으며(55.7% vs 44.3%, 66.1% vs 33.9%, 61.9% vs 38.1%) 본 연구에서도 비슷한 결과를 확인할 수 있었다(60% vs 40%). Allard(1)에 의하면 10세 이하의 환자가 31.5%, 30세 이상의 환자가 34.6%였으나 본 연구에서는 그 비율이 각각 29.3%와 46.7%로 나타났

Table 4. Recurrence according to type of operation

	Recurrence (n=4)	No recurrence (n=71)	P
Excision	2	9	0.040
Sistrunk	2	62	

다. 비교적 최근에 얻어진 연구결과들에서 갑상선관 낭종의 성인 환자가 소아 환자보다 더 많은 것으로 보고되고 있지만 대부분 100 예 미만의 작은 표본을 대상으로 얻은 결과들이라는 점을 고려해야 한다.

대부분의 갑상선관 낭종은 정중선 부위에서 발견되며 10~24%에서 측면 부위, 주로 왼쪽에 있는 것으로 보고되고 있다.(8) 측면 부위의 갑상선관 낭종은 진단에 어려움을 야기할 수도 있다. 본 연구에서는 48명(64.0%)의 환자들이 정중선 부위에 병변이 있었고 18명(24.0%)의 환자들이 좌측으로 치우친 부위에 병변을 가지고 있었다. 낭종의 부위는 소아와 성인 집단 사이에 유의한 차이가 없었으며 Brousseau 등(4)의 연구에서도 유사한 결과가 보고되었다.

Allard(1)은 약 70~80%의 갑상선관 낭종 환자들이 설골 아래에 낭종을 가지고 있는 것으로 보고하였고 Ahuja 등(9)은 소아 환자의 47.8%, 성인 환자의 82.5%가 설골 아래에 낭종이 위치하고 있다고 보고하였다. 반면 Brousseau 등(4)은 설골 위치에 낭종이 가장 많이 생긴다고 보고하였다. 본 연구에서는 설골 아래에 갑상선관 낭종이 가장 많이 생기는 것으로 분석되었고 소아와 성인 두 집단 간 위치의 차이는 유의하게 발견되지 않았다.

Lin 등(7)은 성인의 갑상선관 낭종 크기가 소아보다 더 크다고 보고하였으며, 본 연구에서도 같은 결과를 확인할 수 있었다. 소아 집단에서는 대부분(83.3%)의 낭종이 3 cm보다 작았으나 성인에서는 44.4%의 낭종만이 3 cm 미만의 크기였다. 낭종이 나이에 따라 커지는 경향이 있는 것으로 추정할 수 있다.

본 연구에서 주요한 갑상선관 낭종 진단 도구는 초음파, 세침흡인, 전산화단층촬영, 갑상선기능검사, 갑상선 스캔 5가지였다. 소아에서 가장 많이 시행된 초음파 검사는 비침습적이고 비용대비 효과적이며 진정을 필요로 하지 않으면서도 낭종과 갑상선에 대한 중요한 정보들을 제공해줄 수 있다는 장점을 가지고 있다. 하지만 특이도가 부족하고 5%의 위양성을 보인다는 점, 그리고 낭종 내에 고형 성분이 있을 경우 정확한 감별진단이 어렵다는 단점을 가지고 있다.(10) 만일 고형 성분이 발견된다면 초음파 유도 하의 세침흡인검사를 시행할 수 있으며 이소성 갑상선, 지방종, 림프절병증, 그리고 악성종양을 감별진단할 수 있다. 비록 진단적 정확도(민감도 62%, 양성예측률 69%)는 낮은 편으로 알려져 있지만,(11) Chen(12)에 따르면 세침흡인은 수술 전 목의 종괴에서 악성 소견을 발견하는 데 있어 가장 유용한 검사

이다. Patel 등,⁽¹³⁾ Luna-Ortiz 등⁽¹⁴⁾은 소아를 제외한 모든 환자에서 세침흡인검사를 시행해야 한다고 주장하기도 하였다. 본 연구에서 수술 후 유두암으로 진단받았던 두 명의 환자 역시 수술 전 세침흡인검사를 통해 미리 악성세포의 존재를 확인하였다. 일반적으로 소아에서는 시술 중 있을 수 있는 손상의 위험성 때문에 세침흡인검사를 흔하게 시행하지는 않는다. 전산화단층촬영은 경부 종괴의 위치, 성상, 주변 구조물, 이소성 갑상선의 존재 등에 대한 정보를 상세하게 제공해주며 비용적인 측면에서도 합리적이기 때문에 성인 환자에서 가장 많이 쓰이는 진단방법이다. 소아에서는 종종 진정이 필요하며 방사선 조사에 대한 우려가 있어서 자주 사용되지 않는다. 갑상선 스캔은 이소성 갑상선의 존재를 밝히는 데 유용하게 쓰일 수 있으나 방사성 동위원소를 정맥주사한 뒤에 시행해야 하는 점 때문에 통상적으로 시행되지는 않는다. 갑상선기능검사는 환자가 과거력상으로 특이소견이 없거나 임상적으로 갑상선 기능이 정상인 경우에는 반드시 시행하지는 않는다. 전산화단층촬영과 초음파, 그리고 필요에 따른 세침흡인검사만으로도 낭종에 대한 대부분의 감별진단을 확실하게 수행할 수 있지만, 이소성 갑상선의 낭종성 혹은 출혈성 변화를 감별진단하는 것은 여전히 어려운 일이 될 수 있다. 문헌상으로도 이소성 갑상선은 1~2%의 발생률을 보이는 것으로 알려져 있다.^(1,2) 이소성 갑상선의 가능성은 수술 중에도 항상 염두에 두어야 한다. 또한 수술 전 정상 갑상선의 위치나 기능에 대해서도 미리 고려해야만 수술 후 갑상선 기능 저하증 등의 부작용을 최소화할 수 있다.⁽⁷⁾

1920년에 Sistrunk⁽⁵⁾가 처음 그의 이름을 딴 수술 방법을 소개한 이후로 이는 현재까지도 가장 보편적인 갑상선관 낭종의 치료법으로 인정받고 있으며 수술 후 재발률은 3~4%로 알려져 있다.^(15,16) 본 연구에서 성인 환자군의 재발은 없었지만 소아 환자군에서 4명의 환자가 재발 소견을 보였다. 그 중 2명이 Sistrunk 수술, 2명이 단순 낭종절제술을 받았던 환자였으며 3명이 재수술을 시행받았으나 그 중 2명은 다시 재발소견을 보였고 이후 추적관찰이 되지 않았다. 첫 번째 수술일로부터 재발 진단까지의 기간은 각각 2개월, 5개월, 7개월, 40개월이었다. 본 연구에서는 단순절제술의 재발률(18.2%)이 Sistrunk 수술의 재발률(3.1%)보다 유의하게 높은 것으로 나타났다($P < 0.040$). Lin 등⁽⁷⁾의 연구에서도 Sistrunk 수술을 받은 소아 환자에서 재발률이 더 낮은 것으로 보고되었다.

갑상선관 낭종 내에서의 악성세포는 매우 드문 경우로, 문헌에 의하면 전체 낭종의 1%가 채 되지 않으며 평균 연령은 40세 정도이고 여성에서 더 많이 발견되는 것으로 알려져 있다.^(17,18) 갑상선관 낭종 내 유두암의 수술적 치료 방법에 대해 Plaza 등⁽¹⁹⁾은 연령 (>45세), 방사선 노출력, 영상 검사상 갑상선 내의 종양

이나 비정상적 림프절, 종양의 크기 (>1.5 cm), 낭종 벽의 침범 등을 고위험 인자로 정하고 이에 해당하는 환자는 갑상선 전절제술(total thyroidectomy) 및 방사성 요오드 요법(radioactive iodine therapy)을 시행해야 한다고 제안하였다. 본 연구에서 유두암 진단을 받은 두 명의 환자는 모두 낭종의 크기를 제외한 다른 고위험 인자를 가지고 있지 않았다. 두 명의 유두암 환자는 모두 여성이었으며 나이는 24세, 38세였다. 두 환자 모두 수술 전 세침흡인검사서 낭종 내의 유두암 진단을 받았고 둘 다 Sistrunk 수술을 받았으며 낭종의 크기는 각각 3.0, 2.5 cm이었 고 조직학적으로 유두암이 낭종 내에 국한된 소견을 보였다. 수술 후 별도의 추가적인 치료는 시행되지 않았다. 추적관찰 기간은 수술 후 각각 51개월, 9개월로, 이 기간 내에 초음파 및 갑상선 기능 검사상 재발이나 합병증의 소견은 보이지 않고 있다.

결 론

본 연구에서 갑상선관 낭종은 10세 이전에 가장 많이 발생하지만 성인에서도 소아 못지 않게 많이 발생하는 것으로 나타났다. 소아와 성인 환자군에서 성별이나 낭종의 부위, 위치의 차이는 없었으나 낭종의 크기는 성인이 소아보다 더 큰 편이었다. 성인에서는 전산화단층촬영이, 소아에서는 초음파가 가장 많이 시행되는 진단 방법이었다. 임상적으로 갑상선관 낭종의 감별진단이 필요한 경우 초음파나 전산화단층촬영 외에 추가적인 검사를 시행할 수 있으며, 특히 성인에서 악성종양의 가능성이 의심된다면 세침흡인검사가 유용한 정보를 제공해줄 수 있다. 본 연구와 이전의 문헌들을 종합해볼 때, 갑상선관 낭종의 치료에 있어서 단순 낭종절제술로 충분한 경우도 있지만, 재발의 위험성을 고려하면 Sistrunk 수술이 가장 적절한 수술적 치료법으로 추천되어야 할 것이다.

REFERENCES

1. Allard RH. The thyroglossal cyst. *Head Neck Surg* 1982;5:134-46.
2. Tunkel DE, Domenech EE. Radioisotope scanning of the thyroid gland prior to thyroglossal duct cyst excision. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1998;124:597-9.
3. Ren W, Zhi K, Zhao L, Gao L. Presentations and management of thyroglossal duct cyst in children versus adults: a review of 106 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2011;111:e1-6.
4. Brousseau VJ, Solares CA, Xu M, Krakovitz P, Koltai PJ. Thyroglossal duct cysts: presentation and management in children versus adults. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003;67:1285-90.
5. Sistrunk WE. The surgical management of cysts of the thyroglossal tract. *Ann Surg* 1920;71:121-122.

6. Shahin A, Burroughs FH, Kirby JP, Ali SZ. Thyroglossal duct cyst: a cytopathologic study of 26 cases. *Diagn Cytopathol* 2005;33:365-9.
7. Lin ST, Tseng FY, Hsu CJ, Yeh TH, Chen YS. Thyroglossal duct cyst: a comparison between children and adults. *Am J Otolaryngol* 2008;29:83-7.
8. Dedivitis RA, Camargo DL, Peixoto GL, Weissman L, Guimarães AV. Thyroglossal duct: a review of 55 cases. *J Am Coll Surg* 2002;194:274-7.
9. Ahuja AT, King AD, King W, Metreweli C. Thyroglossal duct cysts: sonographic appearances in adults. *AJNR Am J Neuroradiol* 1999;20:579-82.
10. Ahuja AT, King AD, Metreweli C. Sonographic evaluation of thyroglossal duct cysts in children. *Clin Radiol* 2000;55:770-4.
11. Al-Khateeb TH, Al Zoubi F. Congenital neck masses: a descriptive retrospective study of 252 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 2007;65:2242-7.
12. Chen KT. Cytology of thyroglossal cyst papillary carcinoma. *Diagn Cytopathol* 1993;9:318-21.
13. Patel SG, Escrig M, Shaha AR, Singh B, Shah JP. Management of well-differentiated thyroid carcinoma presenting within a thyroglossal duct cyst. *J Surg Oncol* 2002;79:134-9; discussion 140-1.
14. Luna-Ortiz K, Hurtado-Lopez LM, Valderrama-Landaeta JL, Ruiz-Vega A. Thyroglossal duct cyst with papillary carcinoma: what must be done? *Thyroid* 2004;14:363-6.
15. Athow AC, Fagg NL, Drake DP. Management of thyroglossal cysts in children. *Br J Surg* 1989;76:811-4.
16. Bennett KG, Organ CH Jr, Williams GR. Is the treatment for thyroglossal duct cysts too extensive? *Am J Surg* 1986;152:602-5.
17. Heshmati HM, Fatourehchi V, van Heerden JA, Hay ID, Goellner JR. Thyroglossal duct carcinoma: report of 12 cases. *Mayo Clin Proc* 1997;72:315-9.
18. Kennedy TL, Whitaker M, Wadih G. Thyroglossal duct carcinoma: a rational approach to management. *Laryngoscope* 1998;108:1154-8.
19. Plaza CP, López ME, Carrasco CE, Meseguer LM, Perucho Ade L. Management of well-differentiated thyroglossal remnant thyroid carcinoma: time to close the debate? Report of five new cases and proposal of a definitive algorithm for treatment. *Ann Surg Oncol* 2006;13:745-52.