

방사성요오드 치료를 시행한 설갑상선 1예

연명호 · 최용혁 · 최영락 · 박우리 · 최형진 · 오태근 · 전현정

충북대학교 의과대학 내과학교실

A Case of Lingual Thyroid Treated by ^{131}I Ablation

Myeong Ho Yeon, Yong Hyeok Choi, Young Rak Choi, Woo Ri Park, Hyung Jin Choi, Tae Keun Oh, Hyun Jeong Jeon

Department of Internal Medicine, Chungbuk National University College of Medicine, Cheongju, Korea

A lingual thyroid is a rare developmental anomaly caused by the failure of the descent of the thyroid gland anlage early in the course of embryogenesis. The incidence of lingual thyroid has been reported to be 1/100,000. Lingual thyroid is often asymptomatic but may cause dysphagia, dysphonia, upper airway obstruction and hemorrhage. In this report, we described the case of a 50-year-old women experiencing lingual thyroid who had subclinical hypothyroidism. She underwent successful ^{131}I ablation and has done well on thyroid hormone replacement therapy. (*Endocrinol Metab* 27:303-307, 2012)

Key Words: Hypothyroidism, Lingual thyroid, Radiotherapy

서 론

설갑상선은 갑상선 이동 과정에 장애가 발생하여 맹공(foramen cecum)과 후두개 사이에서 발생하는 선천성 기형으로 1869년 Hickman [1]에 의해 처음 보고되었다. 100,000명당 1명의 비율로 발생하는 드문 질환이며 남성보다 여성에서 4-7배 더 호발하는 것으로 알려져 있다. 발생 연령은 출생 시부터 고령까지 다양하나, 주로 소아에서 진단되는 경우가 많다[2]. 무증상인 경우가 많으나 이후 이물감, 연하장애, 발성장애, 호흡곤란, 출혈 등 다양한 증상이 나타날 수 있으며, 증상은 설갑상선 크기에 영향을 받는다[3]. 증상이 없는 경우는 경과 관찰을 하며 연하장애, 호흡곤란, 출혈 및 궤양형성으로 인한 악성 가능성이 있는 경우에는 환자의 연령 및 증상에 따라 갑상선호르몬, 방사성요오드 치료를 이용한 내과적 치료와 수술이 선택적으로 시행되고 있다[4].

저자들은 연하곤란과 인후통으로 내원한 50세 여자 환자에서 방사성요오드 치료를 시행한 설갑상선 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자: 50세, 여자

주소: 연하곤란, 인후통

현병력: 환자는 약 5년 전 갑상선기능저하증을 진단받고 갑상선호르몬을 복용하였고 1년 전부터는 복용을 중단한 상태로 이전에 특이 증상이 없었다. 한달 전부터 목이 붓는 듯한 느낌이 있었고 이후 점점 증상이 심해지며 연하곤란, 인후통, 목소리 변화가 있어 인근 병원을 방문하였고 혀의 기저부에 흰색의 종괴 소견을 보여 본원으로 전원되었다.

과거력: 특별한 과거력은 없었고 현재 복용중인 약제는 없었다.

가족력: 특이사항 없었다.

사회력: 특이사항 없었다.

신체검사 소견: 혈압 140/80 mmHg, 맥박수 60회/분, 호흡 20회/분, 체온 36.5°C였다. 구강 내 시진 및 후두경 소견에서 혀의 기저부에 약 2.5 × 1.5 cm의 무통성인 흰색의 종괴가 관찰되었다. 경부 림프절은 만져지지 않았고 전신에 부종도 없었으며 흉부 진찰 및 복부 진찰은 정상소견이었다.

Received: 16 April 2012, Accepted: 30 May 2012

Corresponding author: Hyun Jeong Jeon

Department of Internal Medicine, Chungbuk National University Hospital, Chungbuk National University College of Medicine, 776 1sunhwan-ro, Heungdeok-gu, Cheongju 361-711, Korea

Tel: +82-43-269-6352, Fax: +82-43-273-3252, E-mail: endoann@nate.com

Copyright © 2012 Korean Endocrine Society

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

검사 소견: 일반 혈액검사에서 헤모글로빈이 11.8 g/dL로 약간 감소되어 있었고 일반 생화학검사에서 알칼리성 탈인산화효소가 326 IU/L로 증가하여 있는 소견 이외에 다른 검사항목은 모두 정상 범위였으며 혈장 전해질검사 및 혈액검사에서 모두 정상범위의 결과를 나타내었다.

갑상선기능검사에서 T3 89.0 ng/dL (정상치, 78-182), free thyroxine (T4) 0.92 ng/dL (정상치, 0.89-1.79)로 정상 범위였으나, 혈청 갑상선자극호르몬(thyroid stimulating hormone, TSH)은 13.0 μ IU/mL (정상치, 0.17-4.05)로 증가되어 있었다. 갑상선 자가항체검사에서 anti-thyroglobulin antibody 68 IU/mL (참고치, 30 이하), anti-thyroid peroxidase antibody 100 IU/mL (참고치, 30 이하)를 나타내었다.

영상의학 소견: 흉부 방사선 촬영은 정상 소견이었고 경부 전산화 단층촬영에서는 정상 위치의 갑상선은 보이지 않았다(Fig. 1A). $2.6 \times$

2.9×3.5 cm 크기의 조영 증강이 잘되는 혀의 기저부 종괴가 관찰되었다. 이 종괴는 주변 조직과 비교적 경계가 잘 그려졌으며 연구개에 인접하고 있었다(Fig. 1B, C).

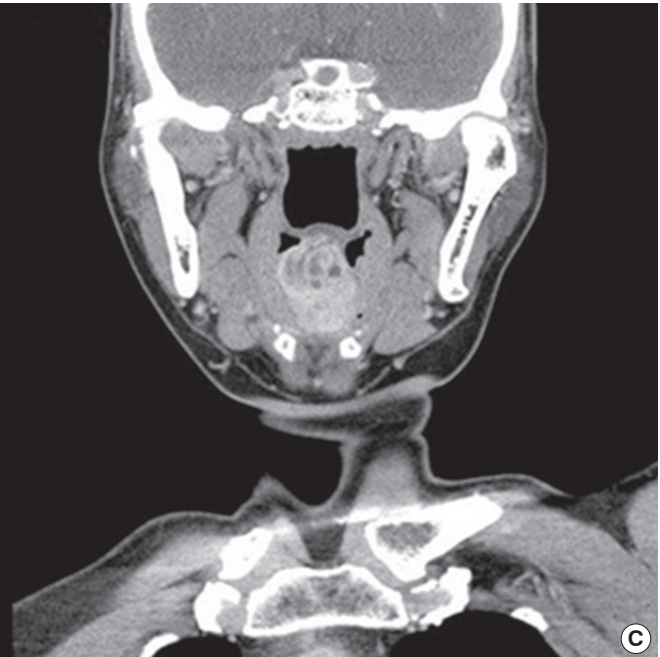
조직검사 소견: 혀의 기저부의 종괴에 대해 레이저 내시경 수술적 생검을 이용한 조직검사를 시행하였고 조직병리학적 소견상 비전형적인 상피세포로 둘러싸인 다양한 크기의 퇴행성 여포가 관찰되었으며 기질에는 유리질화가 관찰되었다. 이에 저자들은 설갑상선으로 생각되는 이소성 갑상선조직으로 진단하였다(Fig. 2).

핵의학검사 소견: 4 mCi 용량으로 131 I 스캔을 시행하였고 혀의 기저부에 설갑상선으로 생각되는 국소적인 흡수소견이 보였다(Fig. 3).

치료 및 경과: 혈액검사에서 불현성 갑상선기능저하증 소견이 관찰되고 조직검사에서 악성화 증거가 없으며 호흡곤란 증상이 없어 갑상선호르몬 투여를 시작하였다. 갑상선호르몬 투여 후 환자의 인후통 및 목소리 변화는 호전되었다. 투여 1개월 후, TSH 1.39 μ IU/mL (정상치, 0.17-4.05)가 정상적으로 유지되었으나 환자는 다시 연하곤란 및 인후 불편감을 호소하여 방사성요오드 30 mCi 투여를 시행하였다. 방사성요오드 투여 2개월 후까지 갑상선기능은 갑상선호르몬 투여 없이, 정상적으로 유지되었다. 투여 3개월 후, 환자의 증상은 호전되었다. 그러나, free T4는 정상적으로 유지되나, TSH 상승이 관찰되었다. 투여 4개월 후, 환자는 1개월간 2 kg의 체중 증가 및 피로감을 호소하였다. 4 mCi 용량으로 시행한 131 I 전신스캔에서 여전히 혀의 기저부위에 국소적인 흡수소견이 관찰되었고(Fig. 4) 갑상선



Fig. 1. Neck computed tomography (CT) images. (A) Axial CT image of the neck revealed the absence of thyroid gland at the normal anatomical location. (B, C) CT of the neck revealed $2.6 \times 2.9 \times 3.5$ cm sized well-defined solid and cystic mass at posterior aspect, mid-line portion of tongue.



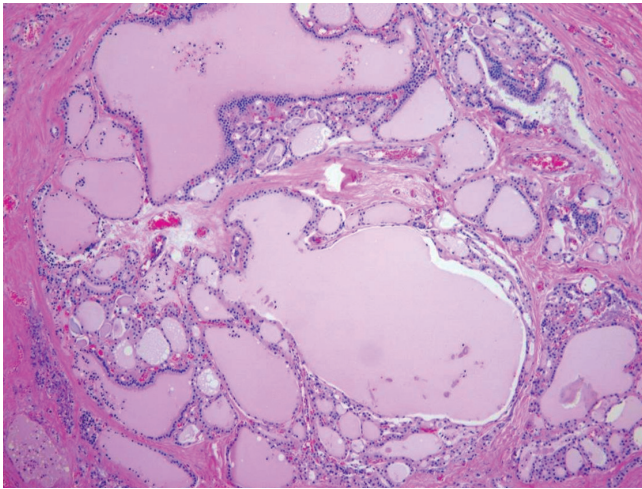


Fig. 2. Histopathologic finding (H&E stain, $\times 100$). Microscopic examination of biopsy specimen showed degenerative varying size follicles lined by some atypical epithelial cells and stromal hyalinization.

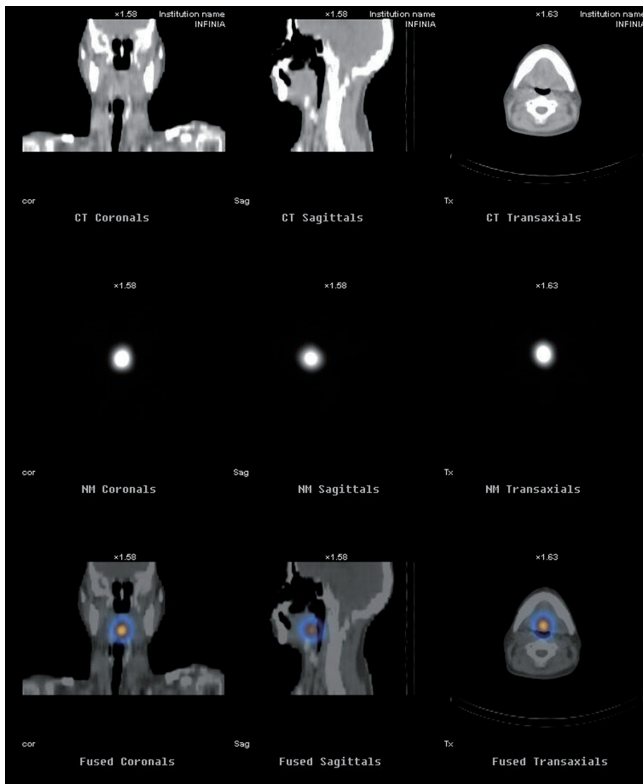


Fig. 3. ^{131}I scan showed one focal iodine uptake in tongue base which is suggestive of lingual thyroid.

기능검사서 free T4 0.47 ng/dL (정상치, 0.89-1.79), TSH 50 $\mu\text{IU/mL}$ (정상치, 0.17-4.05)으로 갑상선기능저하증이 관찰되어 갑상선호르몬을 투여하였다. 현재 환자는 증상 없이 외래 통원 치료 중이다.

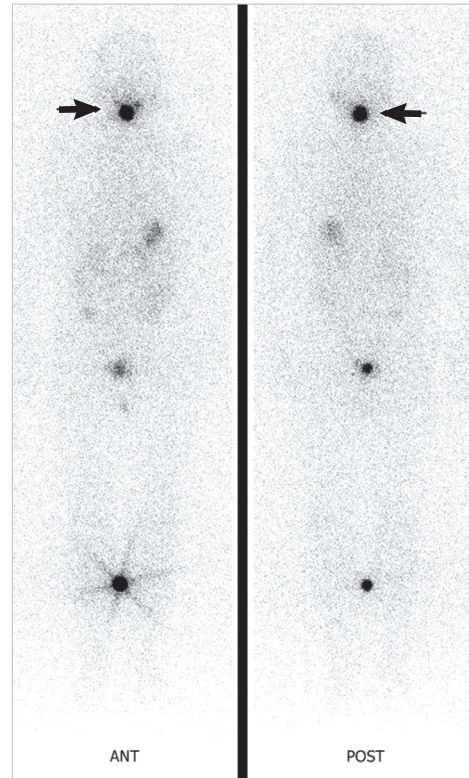


Fig. 4. ^{131}I whole body scan. Anterior and posterior ^{131}I whole body scan showed focal iodine uptake (arrows) in mid portion of tongue base area. The scan was performed after the radioactive iodine therapy.

고 찰

설갑상선은 태생기에 설근부의 맹공에서 경부로 이동하는 과정의 장애로 인해 발생하는데 주로 설맹공에 가장 흔하게 자리 잡는 것으로 알려져 있다[4,5]. 설갑상선은 이소성 갑상선의 90% 정도를 차지하고 있다. 발생률은 100,000명당 1명 정도로 보고되고 있으나, 증상이 없는 경우도 있기 때문에 설갑상선의 발생률을 정확히 추정하기에는 어려움이 있다.

설갑상선의 임상 증상은 다양하다. 무증상인 경우부터 인후 불편감, 인후통, 연하곤란, 호흡장애 및 출혈이 발생할 수도 있으며, 갑상선기능저하증이 동반되어 있는 경우도 30% 정도로 알려져 있다[6]. 본 증례에서는 인후통, 연하곤란과 목소리 변화가 있었으며 갑상선기능은 불현성 갑상선기능저하증으로 나타났다. 설갑상선이 있는 환자의 70-90% 정도에서는 정상 위치에 갑상선이 없는 경우가 많기 때문에 갑상선기능에 대한 평가가 필요하다. 설갑상선에서 갑상선기능이상은 주로 갑상선기능저하증이 많으며, 전체 환자의 30% 정도를 차지한다. 일부 환자에서는 드물게 갑상선기능항진증을 동반하기도 하는데, 이 경우에는 대부분 설갑상선과 함께 정상적인 위치에 갑상선이 존재하는 것으로 보고되어 있다[7]. 본 환자에서는 과거력

에서 5년 전 갑상선기능저하증으로 진단받고 약물 치료를 받은 적이 있었으나, 1년 전부터는 갑상선호르몬을 중단함에도 갑상선기능저하증은 심하지 않았다. 국내에 보고된 증례에서는 갑상선기능저하증이 동반된 경우가 대부분이었으며 본 증례와 같이 불현성 갑상선기능저하증으로 보고된 예는 12세 소아 이외에는 없었다[8]. 소아와 사춘기 시기에 증상 발현의 정점을 이루는데 소아는 주로 갑상선기능저하증이 동반되어 발달 장애로 발현되며 사춘기 시기에는 갑상선호르몬 요구량 증가로 인해 설갑상선 비대가 발생하여 주로 연하곤란, 호흡곤란 등 국소적인 증상으로 나타난다. 임신 및 폐경기에도 갑상선호르몬 요구량 증가로 인해 설갑상선 비대로 인한 국소적인 증상으로 발생한다[9,10]. 이와 함께 외상, 감염, 수술 등 신체적 스트레스로 인한 설갑상선의 비대로 증상이 시작되기도 한다. 본 증례에서도 환자는 상기도 감염 시에 이후 불편감과 연하곤란이 더욱 심했다고 하였다. 설갑상선의 국소적인 임상 증상은 주로 크기와 관련이 많다. 크기가 작고 갑상선기능이 정상인 경우에는 대부분 무증상인 경우가 많으며, 크기가 큰 경우에는 인후곤란, 연하곤란 및 호흡곤란까지도 유발할 수 있다. 일부 환자에서는 궤양이 동반되어 있는 경우, 출혈이 발생하기도 한다. 또한 낭성 변화가 보고되어 있으며 악성이 동반되어 있는 경우가 있기 때문에, 특히 궤양이 동반되어 있는 경우에는 조직검사를 통해 악성 여부를 확인하는 과정이 필요하다. 정상 갑상선과 마찬가지로 유두상 갑상선암이 대부분을 차지하고 있다[11]. 이외에도 여포성 종양, 편평 상피암 등이 보고되어 있다[12]. 본 증례에서 악성 여부를 확인하기 위해 조직검사를 시행했으나 악성세포는 관찰되지 않았다.

설갑상선의 진단은 간접 후두경을 이용하여 위치를 확인할 수 있으며, technesium-99m이나 ^{123}I , ^{131}I 을 이용한 핵의학스캔을 시행하여 확인할 수 있다. 핵의학스캔은 생검을 시행하지 않고 진단할 수 있어, 생검으로 인한 기관 내 출혈 및 갑상선 중독증을 예방할 수 있는 장점이 있다[13]. 경부전산화단층촬영이나 경부자기공명영상으로 병변의 크기와 범위를 쉽게 파악할 수 있으며 주위 연부 조직과의 관계를 확인하는 데 편리하다. 조직검사는 영상학적 검사에서 확인되지 않거나 악성이 의심되는 경우에 시행한다. 설갑상선의 약 70%가 정상 갑상선조직이 없는 유일 갑상선이므로 치료 결정 전 갑상선기능검사가 반드시 선행되어야 한다.

설갑상선의 치료는 아직 명확히 확립되지는 않았지만, 증상에 따라 치료 여부를 결정한다. 설갑상선의 치료 방법은 경과 관찰, 약물 치료, 수술 등이 있다. 증상이 없으며 정상 갑상선기능 환자인 경우 지속적인 경과 관찰로 충분하다. 연하곤란 및 목소리 변성 등 경미한 국소 증상을 보이는 경우 갑상선을 호르몬 투여하여 갑상선자극 호르몬에 의한 설갑상선 비대를 억제하는 치료를 일차적으로 고려할 수 있다[9]. 갑상선호르몬 투여는 투여 후 6-8주 후에 축소가 시작되어 수개월 후에 효과가 나타난다. 따라서 갑상선호르몬 투여 중에 증상이 진행하거나 출혈 및 호흡곤란이 발생하는 경우에는 방

사성요오드 치료 또는 수술적 치료를 고려해야 한다. 방사성요오드 치료는 종물의 축소가 일정치 않고 치료 시 출혈, 통증, 갑상선기능저하, 악성 갑상선조직으로의 변화 가능성 때문에 수술이 불가능한 고령자에서 주로 시행되어왔으며 임신부와 소아에서는 금기에 해당한다[14]. 본 증례에서도 초기에는 갑상선호르몬 투여를 시작했으나 치료 중에 다시 환자가 증상을 호소하여 방사성요오드 치료를 시행하였다. 방사성요오드 치료의 흔한 부작용으로는 침샘염, 구강 건조증, 갑상선염이 생길 수 있고 소화기계 증상으로 오심과 구토도 유발할 수 있다. 설갑상선 환자에서 방사성요오드 치료의 최적의 용량은 아직 정립되어 있지 않다. 2001년 Danner 등[15]과 2008년의 Iglesias 등[16]이 발표한 보고에서 각각 30-85 mCi와 20 mCi 용량으로 설갑상선을 성공적으로 치료하였고 특별한 부작용은 관찰되지 않았다. 본 증례의 환자는 내분비내과 외래에서 방사성요오드 30 mCi를 투여하였고 특별한 합병증의 발생 없이 외래에서 경과 관찰하며 갑상선호르몬을 복용 중이다.

수술적 치료는 내과적 치료에도 불구하고 증상이 악화되는 경우 혹은 출혈, 연하곤란, 기도폐색, 발성곤란 등이 발생한 경우 또는 악성이 의심되는 경우에 시행하며 구강경유법, 경부경유법 등 현재 다양한 접근법이 이루어지고 있다[4,5]. 그러나, 설갑상선의 위치에 따라서는 완전 적출은 어렵기 때문에 보조적인 호르몬 요법을 함께 시행해야 한다.

최근에는 고주파 열치료 및 레이저 치료 등 다양한 치료 방법이 소개되고 있어 치료 방법 선택의 폭이 넓어졌다[17]. 따라서, 설갑상선의 치료는 환자의 연령과 증상, 동반질환, 병변의 크기 등을 고려하여 환자의 개개인의 특성에 알맞은 최적의 치료 방법을 선택하는 것이 필요하다.

요 약

저자 등은 연하곤란과 인후통을 주소로 내원한 50세 여자 환자에서 조직검사 및 ^{131}I 스캔으로 설갑상선을 확인하고 특별한 합병증의 발생 없이 방사성요오드 치료를 시행한 설갑상선 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

1. Hickman W: Congenital tumor of the base of the tongue pressing down the epiglottis on the larynx and causing death by suffocation sixteen hours after birth. *Trans Pathol Soc Lond* 20:160-163, 1869
2. Weider DJ, Parker W: Lingual thyroid: review, case reports, and therapeutic guidelines. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 86(6 Pt 1):841-848, 1977
3. Rahbar R, Yoon MJ, Connolly LP, Robson CD, Vargas SO, McGill TJ, Healy GB: Lingual thyroid in children: a rare clinical entity. *Laryngoscope* 118:1174-1179, 2008

4. Kim BJ, Chun JB, Jung EJ, Han SW, Cynn KS: A case of lingual thyroid. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 27:308-311, 1984
5. Yun JB, Jang HK, Yoo YS: Two cases of lingual thyroid. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 43:1008-1011, 2000
6. Min BS, Ju JW, Han SH, Shin YD, Jung TW, Kim YH: Unexpected difficult intubation due to lingual thyroid: a case report. *Korean J Anesthesiol* 51:236-238, 2006
7. Kuehn P, Newell RC, Reed JF: Exophthalmos in a woman with lingual, subhyoid and lateral-lobe thyroid glands. *N Engl J Med* 274:652-654, 1966
8. Ryu IS, Choi SH: A case of transoral excision using CO₂ laser in management of lingual thyroid with oral bleeding. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 53:99-102, 2010
9. Kansal P, Sakati N, Rifai A, Woodhouse N: Lingual thyroid. Diagnosis and treatment. *Arch Intern Med* 147:2046-2048, 1987
10. Sauk JJ Jr: Ectopic lingual thyroid. *J Pathol* 102:239-243, 1970
11. Pérez JS, Muñoz M, Naval L, Blasco A, Diaz FJ: Papillary carcinoma arising in lingual thyroid. *J Craniomaxillofac Surg* 31:179-182, 2003
12. Bukachevsky RP, Casler JD, Oliver J, Conley J: Squamous cell carcinoma and lingual thyroid. *Ear Nose Throat J* 70:505-507, 1991
13. Farrell ML, Forer M: Lingual thyroid. *Aust N Z J Surg* 64:135-138, 1994
14. Park HM, Gupta S, Skierczynski P: Radioiodine-131 therapy for lingual thyroid. *Thyroid* 13:607, 2003
15. Danner C, Bodenner D, Breau R: Lingual thyroid: iodine 131: a viable treatment modality revisited. *Am J Otolaryngol* 22:276-281, 2001
16. Iglesias P, Olmos-García R, Riva B, Diez JJ: Iodine 131 and lingual thyroid. *J Clin Endocrinol Metab* 93:4198-4199, 2008
17. Cunningham CL, Vilela RJ, Roy S: Radiofrequency ablation as a novel treatment for lingual thyroid. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 75:137-139, 2011