



Ectopic Thyroid Mimicking Lymph Node Metastasis of Thyroid Cancer

Min Young Cho^{ID} and Dong Young Kim^{ID}

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Gil Medical Center, Gachon University College of Medicine, Incheon, Korea

갑상선 암의 림프절 전이를 모방한 이소성 갑상선 환자 1예

조민영 · 김동영

가천대학교 의과대학 가천대길병원 이비인후과학교실

Received April 11, 2023

Revised May 8, 2023

Accepted May 15, 2023

Address for correspondence

Dong Young Kim, MD, PhD
Department of Otorhinolaryngology-
Head and Neck Surgery,
Gil Medical Center,
Gachon University
College of Medicine,
21 Namdong-daero 774beon-gil,
Namdong-gu, Incheon 21565, Korea
Tel +82-32-460-3324
Fax +82-32-467-9044
E-mail hndyk@gilhospital.com

Ectopic thyroid is a rare disease that occurs due to an error in the developmental stage of the embryo where the normal thyroid tissue is positioned at an area other than its normal site of the 2nd to 4th pretracheal area. Usually, the ectopic thyroid is discovered at the midline of a patient. We present this rare case of lateral ectopic thyroid mimicking the lymph node metastasis of thyroid cancer. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2023;66(6):417-21

Keywords Ectopic thyroid; Lymph node; Metastasis.

서론

이소성 갑상선(ectopic thyroid)은 1869년 Hickman에 의해 처음 보고되었으며 갑상선의 선천성 질환으로 갑상선이 기관 앞의 정상 위치에 존재하지 않는 경우를 총칭하며, 발생 과정에서 갑상선 원기의 정상적인 하강에 문제가 생겨 발생한다고 알려져 있다.¹⁾ 2007년 Huang 등²⁾의 연구에서 확인한 결과 설맹공 부위에서 이소성 갑상선이 가장 많이 발생하며 그 외에도 설골 주위, 상부 종격동, 악하선, 식도 주위 등에서 발생할 수 있다고 하였다. 또한, Yoon 등³⁾이 발표한 논문에서는 이소성 갑상선을 진단받은 43명의 한국인 중 23명이 설갑상설(lingual thyroid)이었으며 17명이 설하부 갑상설(sublingual thyroid)로 확인되었다.

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://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.

여러 논문과 연구로 인하여 이소성 갑상선의 발생은 주로 사람의 중앙(midline)에서 발생한다는 것을 알 수 있으나 중앙부를 벗어나 발생하는 경우는 드물다고 알려져 있다. 중앙부가 아닌 측부의 이소성 갑상선은 국내 2예가 보고되어 있으며, 이와 같이 극히 드문 이소성 갑상선을 진단하여 이에 대해 문헌 고찰과 함께 증례 보고를 하고자 한다.^{4,5)}

증례

60세 여자로 고혈압, 고지혈증 및 천식의 병력 이외에 다른 병력은 없었으나 건강검진에서 확인된 다발성 갑상선 결절을 주소로 본 의료기관의 내분비대사내과로 처음 내원하였다. 2018년 처음 본 의료기관의 내분비대사내과에 내원하였을 당시 우측 갑상선 엽에서 1.3 cm 크기의 등예코 양상의 갑상선 결절에서 세침흡인 검사를 진행하였으며 양성 소견이 확인되었다. 2019년 추적 관찰 중 시행했던 갑상선 초음파에서

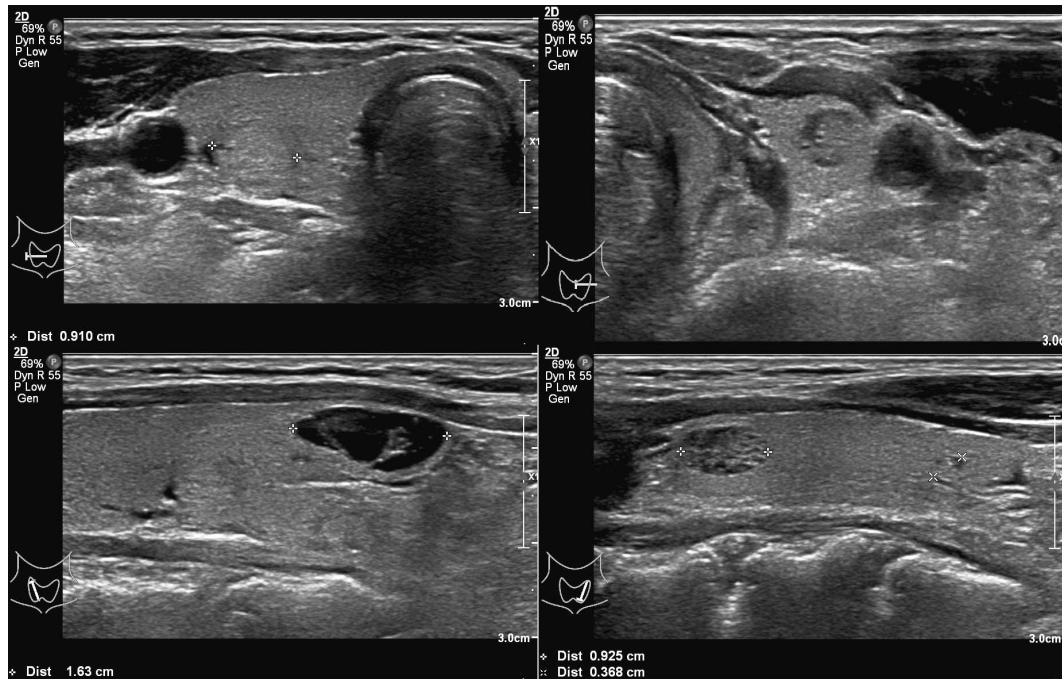


Fig. 1. Multiple thyroid nodules found from ultrasonography of the thyroid.

이전에 확인되지 않았던 좌측 림프절의 이상 비대가 관찰되었다.⁶⁾ 2021년의 Korean Thyroid Imaging Reporting and Data System (K-TIRADS) 갑상선 결절의 평가 권고안을 토대로 악성 림프절 전이를 의심할 수 있는 초음파 소견으로 좌측 측경부에 고에코 양상의 일부 양성 변화가 있으며 과혈관 형성이 동반되는 1.4 cm 크기의 림프절이 이상 비대가 관찰되어 초음파 유도 세침흡인검사를 시행했으며 여포상피세포가 확인되었다(Fig. 1). 갑상선 내에는 모양이 불균일하여 추적 검사가 필요하였으며 시행한 세침조직검사상 양성 여포성 결절로 확인되었으며 그 외 특이소견은 없었다(Fig. 2). 측경부 림프절의 갑상선 종양의 전이 여부를 확인하기 위해 재검사를 시행하였으며, 악성 세포는 보이지 않았으나 갑상선 여포세포와 함께 세침흡인검사서 갑상글로불린 상승이 확인된 상태로 전이 갑상선암 의심으로 수술적 치료를 위해 본과로 의뢰되었다(Fig. 3).

수술 계획을 위해 경부전산화단층촬영을 시행하였으며, 조영제에 의한 artifact에 의해 일부 가려지긴 했지만 조영증강이 되는 림프절이 좌측 경부 3구역에서 확인되었다(Fig. 4).

수술은 림프절 우선 절제 후 동결절편생검에서 악성이 확인될 경우 갑상선 전절제를 하기로 계획하였다. 경부를 신전하고 좌측 흉쇄유돌근 부위 경부 3구역에 후상방으로 상승하는 곡선형 절개를 도안하고 피부판을 거상한 후 흉쇄유돌근 전방에서 후연까지 박리하여 내경정맥을 노출하고 병변으로 추정되는 다발의 결절을 확인하고 절제하였다. 2개의 림프



Fig. 2. Fine needle aspiration was performed from this irregular shaped thyroid nodule.

절과 1개의 정상 갑상선 조직으로 확인되었으며, 악성이 의심되는 소견은 없다는 결과를 확인하고 만일을 대비하여 절개선을 내측으로 연장하여 좌측 갑상선엽에 축지되는 결절을 포함하여 일부를 절제하였다. 최종 조직검사 결과에서 좌측 갑상선엽 상부의 결절에서 결절성 과증식 소견과 좌측 측경부 결절에서도 정상 갑상선 조직으로 확인되었다(Fig. 5).

수술 중 갑상선과 연결되는 조직이 없어 이소성 갑상선으로 진단할 수 있었다.

고 찰

이소성 갑상선이란 선천성 질환으로 갑상선이 정상적으로

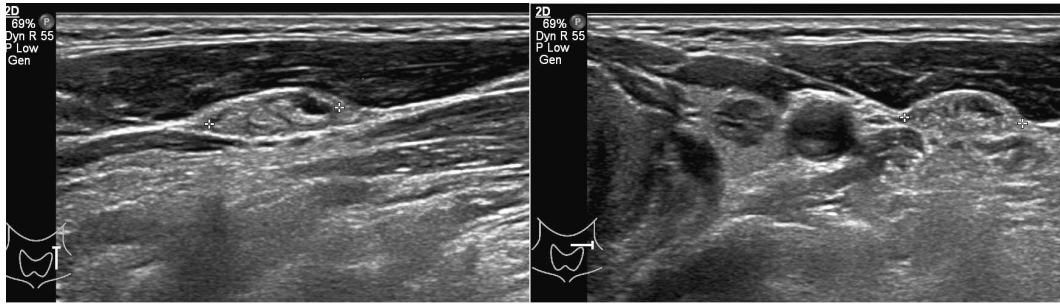


Fig. 3. Enlargement lymph node of left lateral neck.

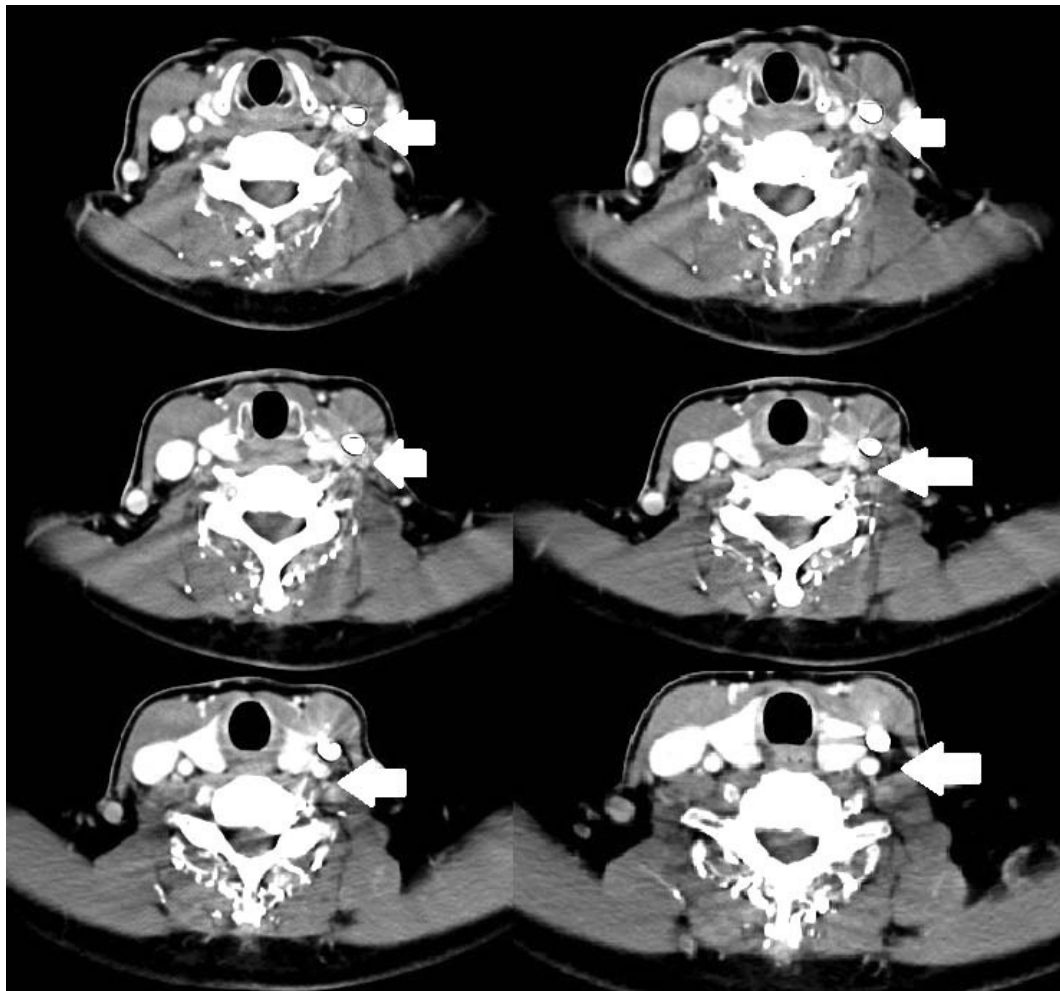


Fig. 4. Head and neck CT scan was performed. Enhanced lymph node of left neck level III due to radio contrast media (arrowhead).

있어야 할 경부의 정중앙 2-4번째 기관연골 앞 부위에 존재하지 않는 경우를 총칭한다.¹⁾ 이때 정상 갑상선이 존재할 수도 있고 존재하지 않을 수도 있다. 이는 갑상선 발생과정에서 태생 4주경에 원기가 관찰되고 인두 중앙의 내배엽 상피가 두꺼워지며 갑상개실을 형성하며, 설기저부의 맹공에서 점차 하강하여 갑상설관을 형성하게 되는데, 태생 7주경 성인의 위치에 도달하고 근위부는 퇴화하게 된다.⁷⁾ 이러한 갑상선의 하

강 과정이 정상적으로 이루어지지 않을 때 이소성 갑상선이 생기게 되는데 대부분 사람의 중앙부에 발생한다.⁷⁾ 하지만 드물게 중앙부 외에 발생하기도 한다는 보고가 있다. 본 증례는 갑상선암의 림프절 전이가 의심되어 수술을 시행한 경우로 중앙부가 아닌 측경부에서 발견되었다. 초음파상 악성의 갑상선은 모양이 횡단 스캔에서 taller than wide, 경계 부위가 명확하지 않은 경우, 현저한 저에코, 석회화 그리고 병적인 경부

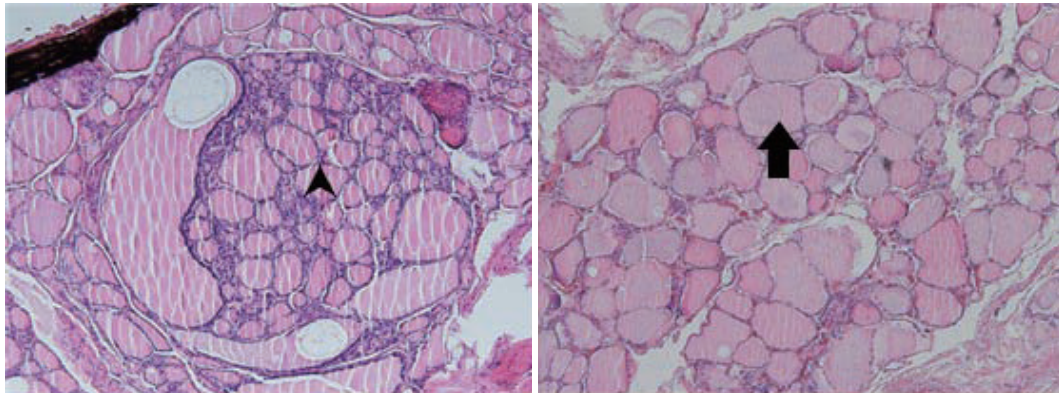


Fig. 5. Hematoxylin and eosin staining of the tissue taken from the surgery (×20). The tissue is showing normal thyroid tissue. Normal thyroid gland composed of follicles lined by cuboidal epithelium (arrowhead) and filled with pink colloid (arrow).

림프절이 동반될 때 의심하여 세침흡인검사 및 추가적인 처치를 진행할 수 있다.⁶⁾ 악성 림프절 전이를 의심할 수 있는 초음파 소견은 fatty hilum의 소실, 둥근 림프절, 낭성 림프절, 내부 석회화, 고에코 림프절, 과혈관 형성 등의 소견들이 있다.⁸⁾ 또한 Hong 등⁹⁾의 연구에서 정상 갑상선세포에서 갑상선글로불린이 생성되듯이 갑상선 암세포에서 또한 갑상선글로불린이 생성된다고 하였다. 본 케이스의 환자에서 좌측 경부의 이상 림프절에서 시행한 초음파 유도 세침흡인검사의 갑상선글로불린은 250 ng/mL 이상으로 Hong 등⁹⁾에서 권고하였던 전이 판정시 갑상선글로불린 검사의 민감도와 특이도의 합이 최대가 되는 값을 35.9 ng/mL로 기준을 초과하였다. 2009년 한국과 미국갑상선학회에서는 갑상선 결절이 악성소견을 보인다고 하여도 0.5 cm 이상인 경우에만 세침흡인세포검사를 하도록 권고하고 있다. 그러나 림프절 전이가 의심되는 경우에는 크기에 관계없이 세침흡인검사가 필요하다고 권고된다. 따라서 본 환자의 경우 림프절 전이를 의심하여 세침흡인검사를 시행하였다.⁸⁾

측경부에 생기는 이소성 갑상선은 빈도가 아주 적어 전 세계적으로 또는 국내에서 몇 례가 보고되었으며, 전체 발생에서 약 1%~3%를 차지한다. 발생빈도가 극히 드물어 발생 기전 또한 알려진 바가 없지만 발생과정에서 7주경 4번째 인두낭에서 외측 원기(lateral anlage)로부터 발생하는 갑상선의 lateral buds가 내측 원기(median anlage)로부터 발생하는 갑상선의 실질과 융합이 되지 않아 기원한 것으로 추정하기도 한다.^{5,10,11)}

측경부의 이소성 갑상선의 경우 갑상선암의 림프절 전이와 구분이 어려우며, 본 증례의 경우도 전이암이 의심되어 수술적 치료를 시행한 경우이다.

이소성 갑상선에서의 원발암이 발생할 수도 있고 분화성 갑상선암의 림프절 전이와 구분이 어려워 측경부 갑상선 조

직의 경우 절제하여 감별이 필요하다. 또한 세침검사서서 갑상선글로불린의 측정 또한 감별 질환에 도움이 된다.⁹⁾

갑상선 결절이 있는 환자에서 측경부 림프절의 이상 소견이 있는 경우 초음파 유도하 세침검사를 통한 갑상선 세포의 유무 확인, CT 검사에서의 과대 밀도를 보이는 경우, 세침검사서서 갑상선글로불린이 확인된 경우에 이소성 갑상선의 가능성 여부를 항상 염두에 두어야 할 것으로 사료된다. 또한 갑상선 동위원소검사(thyroid scintigraphy)는 이소성 갑상선의 가장 유용한 비침습적 검사법으로 알려져 있고, 갑상선의 기능을 반영하는 검사법이기 때문에 구강이나 경부의 다른 종물과 감별할 수 있어 도움이 될 수 있을 것이라 사료된다.¹²⁾ 또한 외측 경부 종물의 원인으로 이소성 갑상선과 감별해야 하는 질병들이 많다. 외측 경부 종물의 원인으로 감별해야 할 다른 질병들에는 본 증례에서 의심하였던 갑상선암의 전이성 림프절, 새열낭종, 캐슬만씨 병(Castleman's disease), 신경원성 종양(neurogenic tumor) 등을 고려할 수 있다. 새열낭종의 경우 초음파에서는 낭종 또는 복합 종괴로 보이고 무에코성의 내용물이 있을 수 있으며, 캐슬만씨 병의 경우 림프절증식증의 한 종류로서 림프선 과오종, 여포성 림프절결절증, 혈관여포성 종격 림프선 증식증 등으로도 불리며 초음파 검사 소견은 림프절 내 세포 구조물의 동질성에 의해 종양의 저반향 성질(hypoechoic character)을 보일 수 있어 감별이 필요하다.¹³⁻¹⁵⁾ 이러한 질병들과의 차이점들을 유의하여 추후 이소성 갑상선을 감별하는 데 도움이 되었으면 한다.

Acknowledgments

None

Author Contribution

Conceptualization: Dong Young Kim. Data curation: Min Young Cho. Formal analysis: Min Young Cho. Investigation: Min Young Cho. Project administration: Dong Young Kim. Resources: Min

Young Cho. Supervision: Dong Young Kim. Validation: Dong Young Kim. Visualization: Dong Young Kim. Writing—original draft: Min Young Cho. Writing—review & editing: Dong Young Kim.

ORCIDs

Min Young Cho <https://orcid.org/0000-0001-7089-241X>

Dong Young Kim <https://orcid.org/0000-0001-5485-7198>

REFERENCES

- 1) Baik SH, Choi JH, Lee HM. Dual ectopic thyroid. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2002;259(2):105-7.
- 2) Huang TS, Chen HY. Dual thyroid ectopia with a normally located pretracheal thyroid gland: review of 33 cases, including two on the left side. *Head Neck* 2007;29(9):885-8.
- 3) Yoon JS, Won KC, Cho IH, Lee JT, Lee HW. Clinical characteristics of ectopic thyroid in Korea. *Thyroid* 2007;17(11):1117-21.
- 4) Lee KN, Kim SM, Choi JH, Ryu KD, Kim BW, Shin MJ, et al. A case of ectopic thyroid tissue diagnosed by fine needle aspiration in the lateral neck. *Endocrinol Metab* 2012;27(3):217-21.
- 5) Kim SH, Sohn JH, Kim JY. A case of lateral ectopic thyroid mimicking the metastatic lymphadenopathy. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2019;62(10):588-92.
- 6) Ha EJ, Chung SR, Na DG, Ahn HS, Chung J, Lee JY, et al. 2021 Korean thyroid imaging reporting and data system and imaging-based management of thyroid nodules: Korean Society of Thyroid Radiology consensus statement and recommendations. *Korean J Radiol* 2021;22(12):2094-123.
- 7) Flint P, Haughey B, Lund V, Robbins K, Thomas JR, Lesperance M, et al. *Cummings otolaryngology: head and neck surgery*. 7th ed. Philadelphia, PA: Elsevier;2020. p.1870-5.
- 8) Yi KH, Lee EK, Kang HC, Koh YW, Kim SW, Kim IJ, et al. 2016 revised Korean Thyroid Association management guidelines for patients with thyroid nodules and thyroid cancer. *Int J Thyroidol* 2016;9(2):59-126.
- 9) Hong DJ, Choi SJ, Kim S. Usefulness of thyroglobulin measurement in fine-needle aspirates of lymph nodes for the diagnosis of lymph node metastasis of papillary thyroid cancer. *Lab Med Online* 2011;1(3):132-7.
- 10) Bersaneti JA, Silva RD, Ramos RR, Matsushita Mde M, Souto LR. Ectopic thyroid presenting as a submandibular mass. *Head Neck Pathol* 2011;5(1):63-6.
- 11) Choi JY, Kim JH. A case of an ectopic thyroid gland at the lateral neck masquerading as a metastatic papillary thyroid carcinoma. *J Korean Med Sci* 2008;23(3):548-50.
- 12) Chawla M, Kumar R, Malhotra A. Dual ectopic thyroid: Case series and review of the literature. *Clin Nucl Med* 2007;32(1):1-5.
- 13) Williams JL, Kaude JV. Sonographic findings in a case of Castleman disease of the neck. *J Ultrasound Med* 1986;5(10):593-4.
- 14) Park SH, Park CJ, Huh JR, Jang SS, Chi HS, Suh CW. A case of multicentric Castleman's disease diagnosed with lymph node biopsy and bone marrow examination. *Korean J Hematol* 2009;44(3):172-6.
- 15) Wadsworth DT, Siegel MJ. Thyroglossal duct cysts: Variability of sonographic findings. *AJR Am J Roentgenol* 1994;163(6):1475-7.