

갑상선관낭종에서 기원한 유두상 암종 1례

단국대학 의과대학 이비인후과학교실

정필섭 · 정필상 · 현민환

=Abstract=

A Case of Papillary Carcinoma arising in a Thyroglossal duct cyst

Pil Seob Jeong, M.D., Phil Sang Chung, M.D., Min Hwan Hyun, M.D.,

*Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery,
Dankook University College of Medicine, Cheonan, Korea*

Thyroglossal duct cysts are the most common anomaly in thyroid development. Generally, duct cysts are benign, but 1 per cent of cases may be malignant. Tumors of the thyroglossal duct are very rare and are usually papillary thyroid carcinomas. In most cases the diagnosis is only established after excision of a clinically benign thyroglossal duct cysts.

The etiology of such tumors is unclear, but de novo origin and spread from a primary thyroid gland tumor has been suggested.

We reported a case of papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst treated successfully with surgical excision in 37-year-old-female.

Key Words : thyroglossal duct cyst, papillary carcinoma

서 론

갑상선관낭종은 갑상선 발달과정에 생성되는 가장 흔한 기형이다. 일반적으로 갑상선관낭종은 양성이며, 약 1%에서 악성일 가능성이 있다.¹⁾ 갑상선관의 종양은 매우 드물고, 대부분이 유두상(papillary) 암종이며, 진단은 임상적으로 양성인 갑상선관낭종을 제거한 후에 이루어진다.^{2,3)}

저자들은 경부의 정중부에 위치한 낭종성 종물을 주소로 내원한 환자에서 세침흡인세포학적 검사상 양성소견을 보였으나, 술전 갑상선기능검사상 갑상

선글로브린이 증가되어 있었고 전산화단층촬영상 낭종내부에 음영이 증가된 종물소견을 보이는 낭종을 Sistrunk씨 술식을 이용한 광범위절제술(En-bloc Resection)을 시행하여, 갑상선관낭종에서 발생한 유두상 암종으로 확인된 1례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 이 O 숙, 37세, 여자.

초진일 : 1997년 4월 17일



Fig. 1. Preoperative axial CT image. The cystic mass with central enhancement(white arrow) located on the front of the thyroid cartilage.



Fig. 2. Gross finding of the removed mass. Note central white solid mass(arrow) within the cyst attached to the hyoid body.

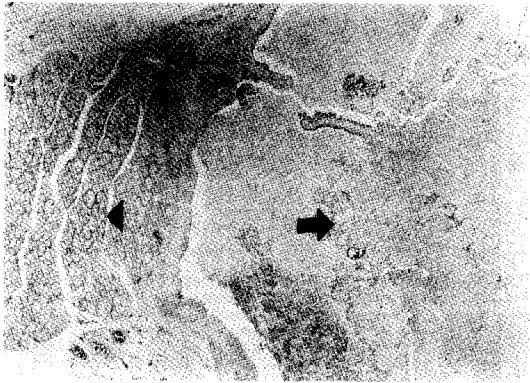


Fig. 3. Microscopic findings of the removed mass. A thyroglossal duct cyst shows a normal thyroid tissue(arrowhead) and a papillary growing tumor within the cystic space(arrow) (H & E, $\times 40$).

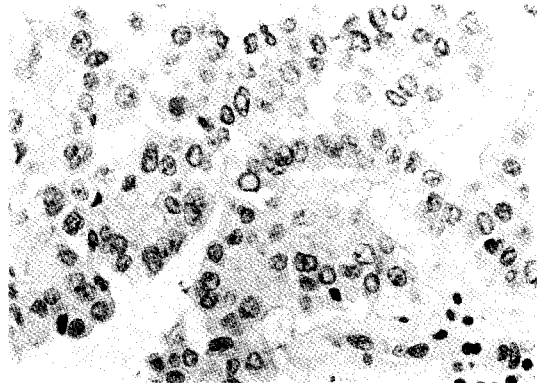


Fig. 4. High power view of the tumor. High-power view of the papillary mass shows the characteristic cytologic findings of papillary carcinoma such as ground glass nuclei, nuclear grooves, and intranuclear cytoplasmic inclusions (H & E, $\times 200$).

주소 : 경부 정중부 종물(기간 : 약 1년)

과거력 및 가족력 : 특이 사항 없음

현병력 : 약 1년전부터 경부의 정중부 종물이 속지되었으나 별 증상없이 지내오다가 내원 약 1개월 전에 우연히 경부의 종물이 커진 것을 확인하고 개인의원에서 경부 전산화단층촬영을 시행한 후 내원하였다.

이학적 소견 : 약 3×3 cm 정도의 연성의 유동성이 있는 종물이 설골하부의 전면에 위치하고 있었다. 혀를 앞으로 내밀 때 종물이 상하로 움직였

다. 촉진시 갑상선은 정상이었으며 경부 다른 부위에서 촉진되는 종물은 없었다.

임상소견 : 내원 당일 시행한 혈액, 뇨, 혈청, 간기능검사, 흉부X-선 검사 및 심전도 등의 임상검사는 모두 정상이었다.

방사선학적 소견 : 개인의원에서 시행한 경부 전산화단층촬영 소견상 설골 전면에 위치한 낭종이 관찰되었으며, 낭종내부에는 부분적으로 음영이 증가된 결절소견을 보였다(Fig. 1). 갑상선은 정상소견이었다.

세침흡인세포학적 검사 : 황갈색의 물질이 1cc 정도 나왔으며, 악성세포는 없었다.

수술소견 : 갑상설관낭종 진단하에 설골하부에 수평절개를 시행하여 Sistrunk씨 술식을 이용한 광범위절제술을 시행하였다. 수술소견상 종물은 약 3 × 3cm의 낭종성 종물이었고 주위 조직과의 유착은 없었다.

병리조직학적 소견 : 적출된 종물의 육안적 소견은 경계가 분명한 2 × 3cm의 낭종성이었으며 조직 절단시 얇은 섬유성 벽으로 둘러싸인 약 3cm 직경의 낭종이 발견되었으며, 낭종의 중앙에 백색의 종양이 관찰되었다. 현미경학적 소견은 낭종벽 내부에 인접하여 있는 유두상 종양조직이 보이며, 낭종 구조내에는 교질상 물질로 채워져 있었다. 유두상 종양세포의 핵은 정상 여포상피세포의 핵보다 크고 원형 또는 난원형이었으며 비교적 깨끗한 편이었다(Fig. 2, 3).

추후경과 : 환자는 수술 6일 후에 합병증없이 퇴원하였으며 현재까지의 추적관찰에서 재발소견은 보이지 않고 있다.

고 찰

갑상설관낭종에서의 종양의 발생은 매우 드물며, 그 빈도는 약 1%로 보고되고 있다.¹¹ Weiss 등¹¹은 문헌고찰상 114례의 악성 갑상설관낭종을 보고하였으며, 이들중 유두상 암종이 81.7%, 혼합성 유두상-여포상(follicular)암종이 6.9%, 편평세포암종이 5.2%, 여포상 암종과 선암종이 각각 1.7%, 표피양(epidermoid) 암종과 역형성(anaplastic) 암종이 각각 0.9%였으며, Renard 등⁵은 갑상설관낭종에서 기원한 150례의 암종을 보고 하였으며, 이들중 85%가 유두상 암종, 약 5%가 편평상피 암종으로, 대부분이 유두상 암종이었다.

갑상설관낭종에서 유래된 유두상 암종의 대부분은 증상이 없으나, 그중 가장 흔한 증상은 1년 이내의 기간을 가진 경부 정중부의 무통성 종창이다.⁶ 갑상설관낭종의 위치는 대부분에서 경부 정중부에 위치하지만, 10-24%에서는 이들보다 약간 외측에 있다.⁶

갑상설관낭종에서 유래된 암종은 1.5 : 1의 비율

로 여자에게 더 흔하며 연령분포는 양성 낭종의 경우 평균 5.5세에 비해 악성의 경우 평균 39세로 양성 낭종보다 더 늦게 나타난다.¹¹

갑상설관낭종에서 유래된 암종의 확진은 대부분 수술후 조직학적 검사를 통해서만 가능하다.^{2,3,7} 그러나 수술전 세침흡인세포학적 검사를 시행하는 것이 도움이 되고, 수술전 갑상선 스캔 및 기능검사를 시행함으로써 주갑상선조직, 국소적 혹은 전신적 종양의 전이 등을 발견할 수 있다. Bardales 등⁸은 세침흡인세포학적 검사에서 비정형적인(atypical) 편평상피세포와 사종체(psamomma body)가 있으면 유두상 갑상설관 암종을 암시한다고 하였다. 그러나 세침흡인세포학적 검사의 경우 충분한 양의 조직을 얻었을 경우에는 쉽게 유두상 암종의 진단을 내릴 수 있으나 종양세포가 낭종의 벽에 국한된 경우에는 진단을 내리기가 힘들다.⁷ Kawamura 등⁹은 낭종성 경부종물에서 낭종액을 흡인하여 방사선면역측정법으로 갑상선글로부린을 측정한 결과 낭종액의 갑상선글로부린이 유두상 암종과 여포성 선종(adenoma)에서 혈청 갑상선글로부린보다 매우 높게 나타났고, 갑상설관낭종에서는 매우 낮게 나타나므로 낭종성 임파전이 있는 잠재성 갑상선암종에서 흡인액의 갑상선글로부린이 진단을 하는데 유용하다고 하였다. 갑상설관낭종의 방사선검사로는 주로 초음파검사와 전산화단층촬영 등이 있다. 초음파검사는 종물이 낭종인지를 확인할 수 있고 낭종의 벽과 내부 내용물을 알 수 있다. 전산화단층촬영은 종물의 정확한 범위를 확인하는데 유용하며 특히 초음파검사로서는 접근이 잘 안되는 설근부에서 종물과 설근부와의 관계를 정확히 볼 수 있으며, 또한 경부에서 림프절종대를 확인할 수 있다. Silverman 등⁶과 Gardner¹⁰은 경부 정중부에 위치한 낭종성 종물에서 전산화단층촬영소견상 결절성의 연부조직 돌출물이 있는 경우 갑상설관낭종에서 기원한 암종을 암시한다고 보고하였다. 그러므로 Gardner¹⁰는 갑상설관낭종에서 기원한 암종의 가능성이 있는 경우 전산화단층촬영 또는 초음파검사를 반드시 시행하여야 하며, 필요한 경우 갑상선 스캔이 필요하다고 하였다. 본 증례에서는 술전 전산화단층촬영상 갑상선 자체는 정상소견을 보여 갑상선 스캔은 시

행하지 않았으나, 낭종성 종물내에 연부조직의 종물이 있어 유두상 암종의 가능성을 어느정도 예측할 수 있었다.

갑상설관낭종에서 기원한 유두상 암종의 치료에 대하여 아직까지 논란이 있는 실정이다.^{6,7,11)} Jacques 등²⁾은 45례의 갑상설관암종 중 38례에서 촉진과 방사선스캔으로 갑상선의 이상을 관찰할 수 없었고, 이들 환자중 갑상선적출술을 시행한 11례에서 오직 3례에서만 갑상선 자체내에 유두상 암종의 병소를 관찰하였다고 보고하였다. Sistrunk씨 술식 이외에 갑상선절제술의 필요성에 대해서는 논란이 많은 실정이나, 갑상선 스캔과 전산화단층촬영상 정상이고, 임파절종대나 경부 방사선 조사력이 없는 경우는 Sistrunk씨 술식만으로도 충분할 것으로 사료된다.^{6,11)} 그러나 Myer 등¹²⁾은 소아에서는 갑상선내 암종의 가능성 때문에 갑상선전절제술이 고려되어야 한다고 보고하였다. 최 등¹³⁾은 갑상설관 잔유조직에서 발생한 유두상 선암 2례에서 Sistrunk씨 술식을 이용한 광범위 절제술과 갑상선 근전절제술을 시행하여 좋은 결과를 보고하였다. 본 증례에서는 이학적 검사 및 전산화단층촬영상 갑상선 자체의 이상소견은 없었기 때문에 Sistrunk씨 술식을 이용한 광범위 절제술만으로 치료가 충분한 것으로 사료된다. 갑상설관낭종에서 기원한 암종을 가진 모든 환자들에서는 정기적인 추적관찰과 갑상선자극호르몬 분비를 적게하기 위하여 갑상선호르몬제의 투여가 적절히 사용되어야 한다.^{3,12,13)} 국소 임파절 전이의 빈도는 갑상설관낭종에서 기원한 유두상 암종이 7%며, 갑상선에서 발생한 유두상암종이 50-76%로서 갑상설관낭종에서 기원한 유두상 암종의 예후는 매우 좋은 것으로 알려져 있다.¹⁾

결 론

저자들은 경부의 정중부에 위치한 낭종성 종물을 주소로 내원한 환자에서 Sistrunk씨 수술법을 이용하여, 갑상설관낭종에서 발생한 유두상 암종으로 확인된 1례를 치료하여 좋은 결과를 얻었다.

References

- Allard HB : *The thyroglossal duct cyst. Head Neck Surg.* 1982 ; 5 : 134-136
- Jaques DA, Chambers RG, Oertel JE : *Thyroglossal tract carcinoma. Am J Surg.* 1970 ; 120 : 439-446
- Livolsi VA, Perzin KH, Savetsky I : *Carcinoma arising in median ectopic thyroid (including thyroglossal duct tissue). Cancer.* 1974 ; 34 : 1303-1315
- Weiss SD, Orlich CC : *Primary papillary carcinoma of a thyroglossal duct cyst : report of a case and literature. Br J Surg.* 1991 ; 78 : 1 : 87-9
- Renard TH, Choucair RJ, Stevenson WD et al. : *Carcinoma of the thyroglossal duct. Surg Gynecol Obstet.* 1990 ; 171 : 305-308
- Silvermann PM, Degesys GE, Ferguson BJ, Bierre AR : *Primary papillary carcinoma of a thyroglossal duct cyst : CT findings. Comput Assost Tomogr.* 1985 ; 9 : 4 : 806-8
- Hilger AW, Thompson SD, Smallman LA, Watkinson JC : *Papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst : a case report and literature review. J Laryngol Otol.* 1995 ; 109 : 1124-1127
- Bardales RH, Suhrland MJ, Korourian S, Schaefer RF, Hanna EY, Stanley MW : *Cytologic findings in thyroglossal duct carcinoma. Am J Clin Pathol.* 1996 ; 106 : 5 : 615-9
- Kawamura S, Kishino B, Miyauchi A et al : *The differential diagnosis of cystic neck masses by the determination of thyroglobulin concentrations in the aspirates. Clin Endocrinol.* 1984 ; 20 : 3 : 261-7
- Gardner DJ : *Unusual CT appearance of a thyroglossal duct cyst carcinoma. J Otolaryngol.* 1989 ; 18 : 5 : 258-9

11. Maziak D, Borowy ZJ, Deitel M, Jaksic T, Ralph Edwards A : *Mangement of papillary carcinoma arising in thyroglossal duct analge. Can J Surg. 1992 ; 35 : 5 : 522-5*
12. Myer CM, Cotton RT : *Congenital thyroid cysts and ectopic thyroid. In Thyroid disease : Endocrine Surgery, Nuclear Medicine and Radiotherapy. (Falk, S.A., ed.). Raven Press, New York, 1990, pp 381-388*
13. 최중욱, 정도광, 백세현 : 갑상선관 잔유조직에서 발생한 유두상 선암 2례. 한이인지. 1993 ; 36 : 5 : 1079-1084