

이소성 갑상선 1례 및국내 증례의 임상적 고찰

아주대학교 의과대학 이비인후과학교실

고중화 · 안성윤 · 송정환 · 박승구

= Abstract =

A Case of Ectopic Thyroid with Clinical Evaluation of Fifteen Cases

Joong-Wha Koh, MD, Sung Yoon Ahn, MD, Jung-Whan Song, MD, Seung-Koo Park, MD

*Department of Otolaryngology,
Ajou University School of Medicine, Suwon, Korea*

The authors recently experienced a case of ectopic thyroid. A 15-year-old female patient visited to ENT department with the complaint of the submental neck mass.

On physical examination, the mass was relatively firm, non tender and 3×2cm in size. Oral cavity examination revealed 0.5×0.5cm sized pink colored mass near the foramen cecum area. Suspecting ectopic thyroid, thyroid function test, thyroid scan, neck computed tomogram scan were performed. Thyroid scan revealed a functioning thyroid on the lingual and submental area without normal uptake in the anterior neck area. Thyroid function test was normal. Pre-contrast computed tomogram scan revealed an ectopic thyroid in the lingual and submental area.

A review of literature concerning ectopic thyroid was discussed.

Key Words : Ectopic thyroid. Sublingual thyroid

I. 서 론

이소성 갑상선은 Hickman(1869)이 처음으로 보고한 이후 Gooder(1980)¹⁾가 집계한 바에 의하

면 전세계적으로 약 400례가 보고된 바 있으며 국내에는 1960년 이후 지금까지 15례²⁻¹³⁾가 보고된 바 있다. 인종간, 지역간의 차이 없이 10대 여자에게 가장 많은 빈도를 보이며, 대부분 설맹

교신저자 : 고중화(Joong-Wha Koh, MD)

442-749 경기도 수원시 팔달구 원천동 산 5번지 아주대학교 이비인후과학교실

Tel : 0331) 219-5263 Fax : 0331) 219-5264 E-mail : ent50@madang.ajou.ac.kr



Fig. 1. Lateral neck photograph shows a subtle submental neck mass.

공 부위에 선홍색의 종물을 형성하며 이는 태생 초기에 설맹공에서 갑상선 설판을 따라 전경부의 정상 위치로 내려오는 과정중의 장애로 비정상 위치에 머무르게 됨으로써 초래된다. 이소성 갑상선은 위치와 크기에 따라 인두 불편감, 연하곤란, 호흡곤란, 음성변화, 경부 종물 등의 다양한 임상증세를 일으키며 조직병리학적으로는 갑상선 조직과 유사한 소견을 보이며 악성화를 동반하는 경우도 있다. 최근 저자들은 설하성 이소성 갑상선 1례를 경험하였기에 현재까지 국내 보고된 이소성 갑상선 증례를 모아 임상적 특성, 진단 및 치료방법에 대한 고찰을 해보았다.

II. 증례

15세된 여자 환자는 발생시기 미상인 중앙선 상경부 종물을 주소로 본원 이비인후과 외래를

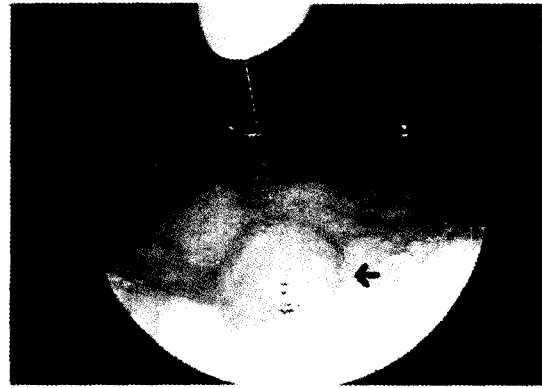


Fig. 2. Endoscopic photograph shows a hemisphere shaped mass near the foramen cecum area (arrow).

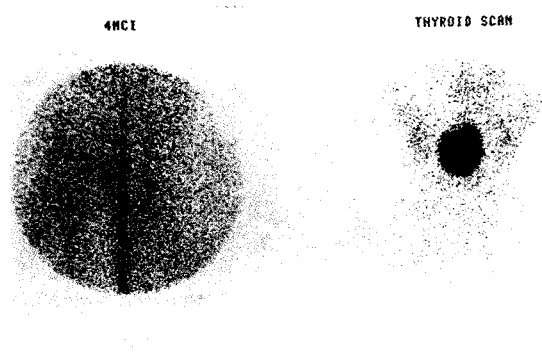


Fig. 3. Thyroid Tc^{99m} scan shows no uptake in the normal thyroid bed, but increased uptake in the upper mid-line neck area.

방문하였다. 과거력, 가족력상 특이사항은 없었고 이학적 소견상 약 3×2 cm 크기의 비교적 단단한 종물이 설골상부에 촉지되었으며 (Fig. 1), 70° 텔레스코프를 이용한 구인두 소견상 설맹공 부위에 설 조직과 경계가 명확한 약 0.5×0.5 cm 크기의 선홍색 반구형 종물이 돌출되어 있었다 (Fig. 2). 이에 갑상선관 낭종 및 이소성 갑상선 의심하에 갑상선 기능검사, 갑상선 동위원소검사, 두경부 전산화단층촬영을 시행하였다. 갑상선 호르몬 측정치는 T3, T4, Free T4, TSH 모두 정상범위였고, 갑상선 동위원소 검사상 정상 위치에는 섭취가 안되고 중앙선 상경부에만 섭취

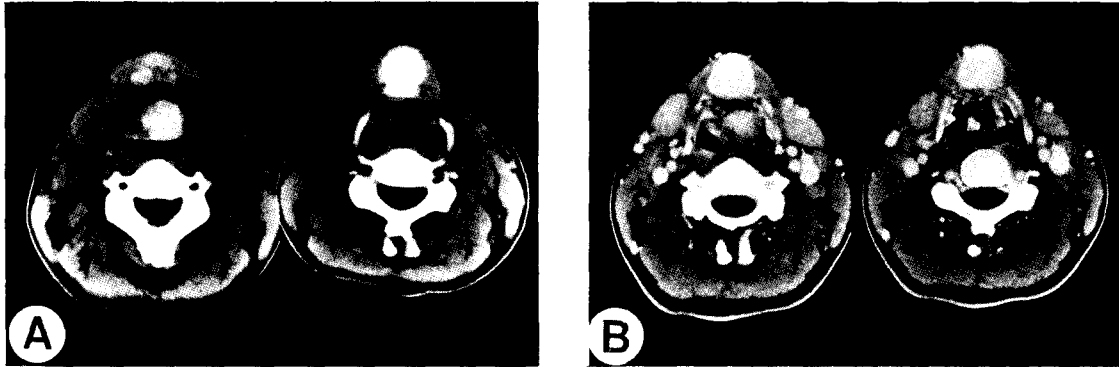


Fig. 4. Pre-contrast (A) and contrast enhanced (B) neck computed tomogram scan reveals a homogenous submental mass.

가 되었다(Fig. 3). 조영제 투여 전의 전산화단층 촬영상 고음영을 보이는 설부 및 설골 상부에 걸친 종물이 관찰되었고 이 종물은 조영제 투여 후에도 같은 음영으로 관찰되었다(Fig. 4). 환자에게는 촉지되는 종물 외에는 특별한 증상이 없어 본 질환이 나타낼 수 있는 임상증상 결과를 설명해준 후 정기적 관찰을 하기로 하였다.

III. 고 찰

이소성 갑상선은 일종의 선천성 기형으로 전체 갑상선 질환의 4,000례중 1례의 비율로 발생되며, 소아에 발생한 경부 중앙선 종괴 146례를 분석한 보고¹⁴⁾에 의하면 이소성 갑상선은 1.4%로 갑상선관낭종 52%, 유피낭종 26%, 임파선 비대 16%, 원인불명성 염증 5%에 비해 상당히 드물다. 국내에서는 윤, 김(1960)²⁾이 처음 보고한 이후 지금까지 15례가 보고된 바 있고, 각 증례에 대한 요약은 Table. 1과 같다.

이소성 갑상선은 크기는 갑상선이 정상위치에 는 결여되고 이소에만 존재하는 aberrant형과 갑상선이 정상위치에 존재하면서 부수적으로 존재하는 accessory형이 있다. 이소성 갑상선 발생 위치는 Baughman(1972)¹⁵⁾에 의하면 설 갑상선, 설하 갑상선, 정상 및 흉골갑상선으로 분류되며 설 갑상선이 85%로 가장 많다. 그 외에도 매우 드물게는 설첨부, 구강저, 비인강, 기관식도부에

발생된 경우도 있다. 국내 증례보고에 따르면 본 증례를 포함한 16례중 설 갑상선 9례, 설하 갑상선 6례, 설 및 설하 혼합성 갑상선 1례로서 설 갑상선이 50%를 차지하였고 본 증례와 같이 설근부와 경부에 걸쳐 존재하는 경우는 없었다. 임상적으로 나타나는 이소성 갑상선은 여자에게 압도적으로 많으며 이는 호르몬 인자에 의해 발생한다¹⁴⁾. 국내 증례들의 경우 역시 16례중 15례가 여자였다.

위치에 따른 증상은 설하, 설골하 갑상선은 종물에 의한 미용문제 외엔 거의 증상이 없으며 설 갑상선은 크기가 클 경우 연하장애, 발성장애, 호흡곤란, 통증, 출혈을 보이며 기능저하된 갑상선에 과다한 TSH의 자극으로 4-6%에서 암으로의 전환이 있을 수 있다. 대개의 이소성 갑상선은 신체의 호르몬 요구량을 충족시키지 못하고 경한 기능저하증 상태를 보이며 실제 Turcot(1962)¹⁶⁾의 보고에서도 모두 기능저하증을 보였다. 반면, 10%에서만 갑상선 기능저하증을 유발한다는 보고도 있다¹⁷⁾. 국내 증례의 경우 2례에서 갑상선 기능저하증이 동반되어 있었다. 증상에 따른 국내 증례들에 관한 분석을 해보면 9례의 설 갑상선중 연하장애를 호소한 경우가 4례(25%), 발성장애 3례(19%), 인두이물감 4례(25%), 발육지체 1례(16%), 아무런 증상없이 우연히 발견된 경우가 2례(13%) 있었으며 호흡곤란, 출혈, 통증을 호소한 경우는 없었다. 국내 증

Table 1. Case presentation of ectopic thyroid since 1960 in Korea

Case	증례수	성별/ 나이	증상	위치	크기	갑상선기능검사		기타검사	치료
						술 전	치료후		
Yoon, Kim	1	F/22	연하장애 발성장애	설근부	2×3cm	-	-	-	경구적적출
Lee, et al	1	F/24	발성장애 인후이물감	설근부	2×1.5cm	-	-	RI uptake study	조직생검후 동위원소치료
Yi CC	1	F/11	무증상	설근부	2×1cm	-	-	RI uptake study	추적관찰
Cho, et al	1	F/30	무증상	설근부	2×1.5cm	-	-	RI uptake study	추적관찰
Kim YS	1	F/33	인후이물감	설근부	2×1.5cm	정상	-	RI scintigram RI uptake study	추적관찰
Kim, et al	1	F/8	인두이물감 연하장애 발성관란	설근부	2.5×2.4cm	정상	술후기능저하	Thyroid scan	경구적 적출후 호르몬치료
Kim, et al	1	F/53	인후이물감	설근부	성인엄지 손가락크기	TSH만증가	-	RI scintigram	추적관찰
Hong, et al	1	F/14	전경부종물	설골적하부	3×4cm	정상	-	RI scintigram	호르몬치료후 전위수술
Park, et al	1	F/2	발육지연 거대실	설근부	1×2cm	T3, T4감소, TSH증가	-	RI uptake study	호르몬 투여, 추적관찰
Kim, Park	3	F/8	전경부종물	설골적하부	2×3cm	술전검사못함	술후정상	-	전위수술
		F/4	전경부종물	설골적하부	2×4cm	술전검사안함	술후정상	-	전위수술
		M/8	전경부종물	설골적상부	2×2cm	?	술후기능저하	조직생검	적출후 호르몬투여
Lee, Kim	2	F/13	전경부종물	설골적상부	3×2.5cm	T3, T4감소, TSH증가	술후기능저하	RI uptake study	적출후 호르몬투여
		F/15	전경부종물	설골적하부	호두알크기	술전검사안함	술후기능저하	-	적출후 호르몬투여
Kinonoman, et al	1	F/25	연하관란	설근부	4×3cm	-	술후기능저하	RI uptake study	경구적 적출술후 호르몬투여
This Case	1	F/15	전경부종물	설골적상부	3×2cm	정상	-	Thyroid scan Neck CT	추적관찰

례들의 갑상선 기능검사 결과는, 1969년 이전에 보고된 5례에서는 전신적 증후, 증세에 따른 갑상선질환 유무를 판정 했을 뿐 시행치 않았다. 본 증례를 포함하여 1969년 이후에 보고된 11례 중 술전 기능검사를 시행하지 못한 경우가 4례 있었는데 이는 모두 이소성 갑상선을 염두에 두지 못하고 갑상선관낭종, 유피낭종으로 오인하여 시술을 시행한 외과 증례였다. 갑상선 동위원소 검사를 시행하지 않은 경우는 4례의 외과증례를 포함하여 모두 5례 였으며 그중 1례는 경구적 적출후 추적관찰이 안되어 상태를 알 수 없었고

2례는 수술중 이소성 갑상선으로 확인되어 전위 수술을 시행했으며 2례는 적출후 갑상선 기능저하증이 발생되었다. 따라서 동위원소 검사는 이소성 갑상선의 진단에 필수적이라 할 수 있겠다. 본 증례는 전산화단층촬영도 시행했는데 진단에 필수적이라고는 할 수 없으나 수술적 치료를 고려하는 사항이라면 수술에 도움을 줄 수 있다고 생각된다.

증상 발현시기는 출생직후부터 60세까지 어느 때나 나타날 수 있고 증상의 발현은 평균 12.5세와 50세에서 주로 나타나는데 증상발현과 관

계있는 요인으로서는 사춘기, 임신, 월경, 폐경기에 의한 크기증가 때문이다¹⁴⁾. 국내 증례들의 경우 2세부터 53세로 평균 18세이고, 설 갑상선과 설하 갑상선을 구분하여 보면, 설 갑상선의 경우 평균 23세, 설하 갑상선의 경우 평균 11세로 설하 갑상선이 설 갑상선보다 증상발현 연령이 낮았다.

이소성 갑상선의 진단은 과거에는 인두개와 유곽유두 사이에 종물이 있을 것, 생검상 갑상선 조직이 발견될 것, 적출 후 갑상선 기능 저하증을 보일 것의 세가지 진단기준이 있었으나 갑상선 동위원소검사가 가능해진 1948년 이후부터는 설근부 종물에 방사선 동위원소의 집적이 있을 것의 조항이 추가되었으며¹⁸⁾, 이 중 조직생검은 출혈, 염증, 괴사로 인한 합병증, 갑상선 기능감소 등의 우려로 갑상선 동위원소 검사가 가능해진 이후로는 금기시되고 있다. 이소성 갑상선은 비교적 임상적으로는 쉽게 진단이 되며 감별해야 할 질환으로는 갑상선관낭종, 유포낭종, 혈관종, 타액선종양, 섬유종 등이 있다.

이소성 갑상선에 대한 치료는 일반적으로 대부분의 경우 특별한 치료를 필요치 않는데 갑상선 기능저하증이 심각한 경우에는 가능한 조기 진단에 따른 치료가 필요하다. 생후 3-6개월 후부터는 신체 및 정신발육장애가 나타나므로 집중적 호르몬 치료가 필요하며 TSH치를 정상보다 약간 낮게 유지할 수 있을 정도로 유지한다. 반응이 없거나 다른 부수적인 증상이 있는 경우, 심한 압박증상, 출혈, 속수무책의 갑상선기능항진, 악성전환이 있을 경우에는 완전적출 후 호르몬 요법이 좋다고 보고된 바 있다¹⁹⁾. 갑상선 동위원소검사가 시행되기 이전에는 대부분 외과적 절제로 치료했으나 술후 갑상선 기능저하증이 초래되어 심각한 합병증이 초래되는 경우가 많았고, 당시 정상적 갑상선이 존재하는 accessory형인 경우에는 완전적출을 시행하고, aberrant형인 경우에는 부분적 적출을 시행했다. 그러나 동위원소 검사가 가능해진 이후로는 네 가지 경우로 나누어 치료를 해오고 있는데, 첫째, 갑상선 기능이 정상이고 특별한 증상이 없는 경우 환자에게 향후 출현 가능한 이소성 갑상선의 증세를

이해시키고 추적관찰하며, 둘째, 갑상선 기능저하증이 있고 종물에 의한 증상이 있는 경우 TSH억제를 위한 갑상선 호르몬 요법을 시행하여 종물을 축소시킨 후 유지량을 계속 투여한다. 보통 호르몬 투여후 6-8주 후에 종물감소가 시작되어 수개월 후에는 거의 축소된다고 한다¹⁹⁾. 셋째, 두번째와 동일한 경우 과거 40년간 흔히 사용되어온 방법으로 호르몬 투여와 함께 RI¹³¹을 병용하는 방법에 의해 섬유화 변성이 초래되어 현저한 종물축소가 가능하다. 국내 문헌상에서도 이러한 경우가 1례 있었다³⁾. 그러나 투여량의 증가에 따른 부갑상선 기능저하, 영구적 갑상선 기능저하, 소아에 있어서의 성호르몬에 대한 악영향, 향후 악성으로의 전환과 같은 전신적 부작용이 있어 최근에는 일부의 환자에게 제한되어 사용되어 진다¹⁵⁾. 넷째, 외과적 치료방법으로 종물에 의한 압박으로 호흡곤란, 발성장애, 연하장애와 같은 심한 증상이 있거나 출혈이 심한 경우에는 외과적 완전적출 후 호르몬 보존요법을 시행하거나, 갑상선 조직을 혈관손상 없이 2등분하여 자가이식을 시행하는 방법이 있다²¹⁾. 전자는 적출후 증상호전이 명확하나 술후 지속적 호르몬치료가 필요하며 후자는 Lawson(1957)이 처음으로 성공하여 여러 술자에 의해 변형되어 현재에도 시행되고 있으나 술후 갑상선 생존이 실패하거나 갑상선, 부갑상선 기능저하가 있을 수 있다. 이 술식의 성공률은 약 30%로 보고되고 있다²⁰⁾.

국내 증례들의 치료방법 및 결과를 분석해 보면 특별한 치료 없이 추적관찰만 한 경우가 4례(27%)^{4-6,8)}, 호르몬치료 2례(13%)^{9,10)}, 동위원소치료 1례(7%)³⁾, 수술적 치료를 한 경우가 9례(60%)^{1,7,9,11,12,13)}인데, 호르몬 치료를 한 2례중 1례는 호르몬 치료에 반응이 없어 전위수술을 시행하였다. 수술적 치료를 한 9례 중 3례는 경부접근을 통한 완전적출을 하였고 3례는 전위수술, 3례는 경부접근을 통한 완전적출을 시행하였는데, 3례의 전위수술중 1례는 호르몬 치료에 실패하였던 경우였다. 수술후 합병증으로 갑상선 기능저하증이 발생된 경우는 5례(56%)^{7,11,12,13)} 있었는데 5례 모두 완전적출을 시행한 경우였다.

본 증례는 경부종괴로 인한 약간의 미용상의 문제가 있으나 갑상선 기능저하증이 동반되지 않고 있고 문헌고찰상에서도 수술로 인한 갑상선기능 저하의 우려가 있어 장기간의 추적관찰만 하고 있다.

IV. 결 론

저자들은 경부종괴를 주소로 내원한 15세 여자에서 이학적 검사, 갑상선기능검사, 동위원소 검사, 두경부 전산화단층촬영으로 이소성 갑상선 1례를 경험하였기에 보고하는 바이며 본 증례를 포함한 국내 증례들의 요약은 다음과 같다.

- 1) 16례 중 여자 15례, 남자 1례로 여자가 월등히 많았다.
- 2) 증상발생 연령은 2세-53세 였다(평균 18세).
- 3) 발생위치는 설 갑상선 9례, 설하 갑상선 6례, 설 및 설하 혼합성 갑상선이 1례였다.
- 4) 내원 당시 T3, T4, TSH에 따른 갑상선 기능검사는 정상 4례, 갑상선 기능저하 3례, 시행치 못한 경우 9례 였다.
- 5) 치료방법으로는 추적관찰 5례, 호르몬 치료 1례, 호르몬 치료후 수술 1례, 동위원소치료 1례, 수술적 치료 8례 였다.
- 6) 술후 갑상선 기능저하증은 5례(56%)에서 발생했다.

이상의 결론으로 이소성 갑상선의 진단은 비교적 쉬우나 갑상선 기능검사 및 동위원소 검사가 필수적이다. 전산화 단층촬영은 수술적 치료를 계획할 경우에는 해부학적 접근에 도움이 될 수 있으며 전산화 단층촬영으로도 이소성 갑상선의 진단이 가능함을 알 수 있었다. 수술적 치료를 할 경우 갑상선 기능저하증의 발생을 항상 염두에 두어야 한다고 사료된다.

References

1. Gooder P: *Follicular carcinoma in a lingual thyroid. J Otolaryngol. 1980; 94: 437-9.*
2. Yoon SH, Kim SK: *A case report of lingual thyroid. Korean J Otolaryngol. 1960; 3: 58-60.*
3. Lee JW, Rhee JC, Park JJ, Cho TH: *A case of lingual thyroid treated with I¹³¹. Korean J Otolaryngol. 1967; 10: 103-6.*
4. Cho CK, Kim BH, Kim SY, Lee SH: *A case of lingual thyroid. Korean J Otolaryngol. 1969; 12: 679-81.*
5. Yi CC: *A case of lingual thyroid. Korean J Otolaryngol. 1969; 12: 67-9.*
6. Kim YS: *A case of lingual thyroid. Korean J Otolaryngol. 1978; 21: 679-81.*
7. Kim BJ, Chun JB, Jung EJ, Han SW, Cynn KS: *A case of lingual thyroid. Korean J Otolaryngol. 1984; 27: 308-11.*
8. Kim HS, Kim HG, Jang MS, Park CW, Ahn KS: *A case of ectopic lingual thyroid. Korean J Otolaryngol. 1987; 30: 299-301.*
9. Hong KH, Kim MJ, Jung SS: *A case of Infrahyoid ectopic thyroid gland. Korean J Otolaryngol. 1993; 36: 1363-6.*
10. Park YS, Cho SH, Choi KJ, Park, JM: *A case of congenital hypothyroidism due to ectopic lingual thyroid. Korean J Ped. 1983; 26: 67-70.*
11. Kim WK, Park KW: *Median ectopic thyroid. Korean J Surg. 1981; 23: 957-9.*
12. Lee DS, Kim SD: *Median ectopic thyroid. Korean J Surg. 1988; 34: 100-3.*
13. Kinoman J, Lee BC, Koh CS: *Lingual goiter. J of Korean Med Ass. 1966; 9: 706-9.*
14. Knight PJ, Hamoudi AB, Vassy LE: *The diagnosis and treatment of mid line neck masses in children. Surgery. 1983; 93: 603-11.*
15. Baughman RA: *Lingual thyroid and thyroglossal duct tract remnants. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1972; 34: 781-99.*

16. Noyek AM: *Thyroglossal duct cyst and ectopic thyroid disorders. Otolaryngol Clin N Amer.* 1981; 14(1): 187-201.
17. Weider DJ, Parker W: *Lingual thyroid review. Case reports and therapeutic guideline. Ann Otol.* 1977; 86: 841-8.
18. Feitelberg S, Kaunitz PE, Wasserman LR, Yohalem SB: *The Use of radioactive Iodine in the diagnosis of thyroid disease. Am J Med Sci.* 1948; 216: 129-35.
19. Wall I, Snow GB: *Benign tumors and tumor-like lesions. In Cummings CW, Fredrickson JM, Harker LA, Krause CJ, Schuller DE, editors. Otolaryngology-Head and Neck Surg. 3rd ed. St. Louis: Mosby Year Book; 1998. 1407-17.*
20. Steinwald OP, Muehrcke RC, Economou SG: *Surgical correction of complete lingual ectopia of the thyroid gland. Surg Clin N Amer.* 1970; 50: 1177-86.