

갑상선 유두상 암종을 동반한 거대 경동맥체 종양 1예

한림대학교 의과대학 강동성심병원 이비인후-두경부외과학교실
성형외과학교실,* 방사선과학교실**

전진형 · 박일석 · 이원중 · 김성동 · 노영수 · 오석준* · 윤대영**

= Abstract =

A Case of Huge Carotid Body Tumor with Thyroid Papillary Carcinoma

Jin-Hyoung Chun, M.D., Il-Seok Park, M.D., Won Jong Lee, M.D.,
Sung-Dong Kim, M.D., Young-Soo Rho, M.D.,
Suk-Joon Oh, M.D.,* Dae-Young Yoon, M.D.**

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Plastic Surgery* and Radiology,**
College of Medicine, Hallym University, Seoul, Korea

Carotid body tumor is a rare benign tumor arising from the paraganglionic tissue of neural crest. Surgical management remains the preferred treatment. Large carotid body tumors frequently encircle the internal carotid and external carotid arteries, and extensive bleeding often complicates the resection, increasing the risk of carotid artery rupture and damage to major cranial nerves. Recent improvements in surgical techniques and selective embolization have lessened the risks of surgical excision, decreased blood loss, and diminished the time required for resection.

The review of literatures revealed a few cases of the carotid body tumor with papillary carcinoma of the thyroid. We report a case of the huge carotid body tumor with papillary carcinoma of the thyroid, which was removed by 4 times of preoperative embolization and transcervical approach.

KEY WORDS : Carotid body tumor · Papillary carcinoma of thyroid.

서 론

경동맥체 종양(carotid body tumor)은 신경릉에서 기원하는 비교적 드문 종양이나 두경부에 발생하는 부신경절종(paraganglioma) 중 가장 많이 발생하는 종양으로 혈관 분포가 풍부하고 발생부위에 중요 구조물들이 인접해 있어 그 치료에 어려움이 많은 것으로 알려져 있다. 국내에는 1969년 처음으로 박¹⁾ 등이 2례를 보고한 후 다수의 증례²⁻⁵⁾들이 소개되었다. 그러나 특히 갑상선 유두상 암종과 동반된 형태로 나타난 예는 내분비 종양과의 연관성에 대한 국내외

보고에도 불구하고 아직까지 국내에 보고 된 바가 없다.

저자들은 편측 성대마비와 우연히 발견된 갑상선 유두상 암종을 동반한 10cm이 넘는 거대 경동맥체 종양을 선택적 혈관 색전술로 종양의 혈관 분포를 감소시킨 후 수술적 방법으로 절제한 1례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

39세 여자환자로 내원 3개월 전부터 서서히 자라는 좌측 경부의 무통성의 거대 종물과 음성변화를 주소로 내원하였다. 환자는 10세 경부터 경부에 종괴가 촉지되었으나 치료를 받지 않았으며, 19세 때 중소병원에서 2회 절제술 시행받았으나 완치되지 않은 상태였다. 과거력상 9년 전 폐결핵을 치료 받은 병력 이외 특이 소견 없었다. 전신소견상

교신저자: 노영수, 134-701 서울 강동구 길동 445
한림대학교 의과대학 강동성심병원 이비인후-두경부외과학교실
전화: (02) 2224-2279 · 전송: (02) 482-2279
E-mail: YS20805@chollian.net

Table 1. Preop & Postop neurologic examination finding

	Preop	Postop 10day	Postop 10month
Vocal cord palsy	Unilateral(+)	Unilateral(+)	Unilateral(+)
Palatal/gag reflex	Symmmetric contraction	Asymmmetric contraction	Asymmmetric contraction
Swallowing difficulty	Mild	Moderate	Mild
Aspiration*	None	Moderate	Mild
Tongue deviation	(-)	(+)	(+)
Shoulder syndrome [†]	Shoulder joint elevation : mild Shoulder pain : mild	Shoulder joint elevation : mild Shoulder pain : mild	Shoulder joint elevation : mild Shoulder pain : mild

* : Preop & Postop esophagographic finding

† : Addition of postop physical therapy

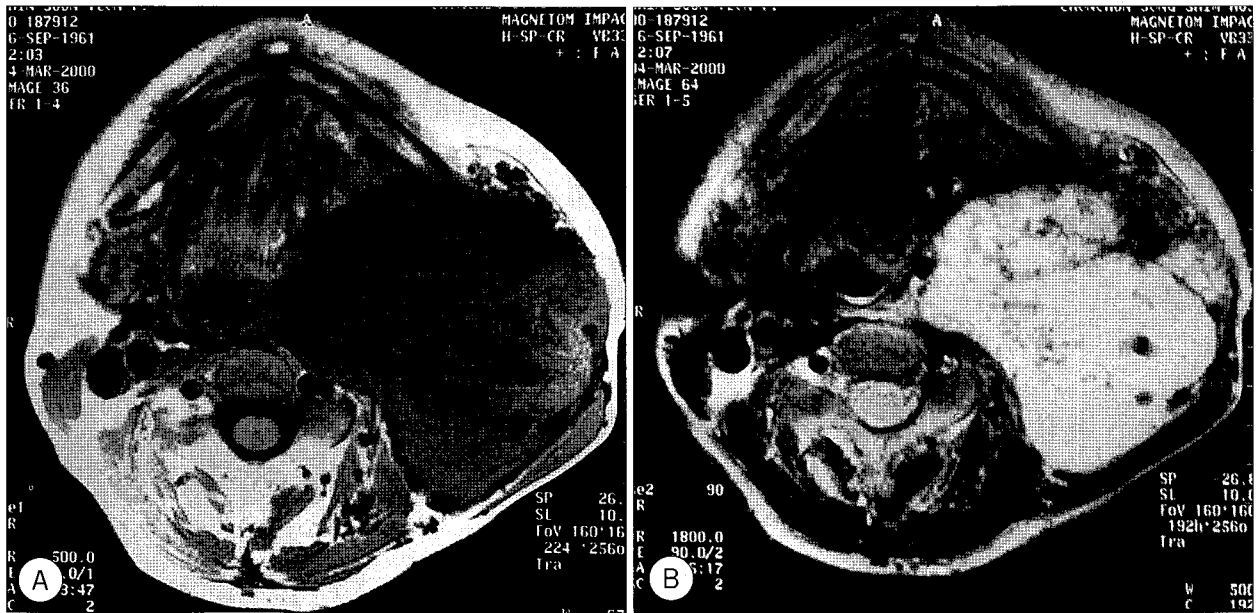


Fig. 1. T1 with gadolinium contrast (A)/T2(B) weighted axial MRI. A strong contrast-enhancing a 10×8×6cm sized, large soft tissue mass is revealed.

경도의 연하곤란과 애성 (hoarseness) 소견 보였고 혈압 및 맥박은 정상이었다. 검사실 소견상 혈청 카테콜아민, 코티졸 및 24시간 소변 검사상 VMA (vanillylmandelic acid) 는 정상이었고 갑상선 기능검사도 정상이었다. 이학적 소견상 좌측 경부의 유돌점에서 쇄골상부에 이르는 12×8cm 크기의 약간 단단한 원형의 무통성 종물이 촉지되었고, 종물은 고정되었으며 촉진시 심장 박동과 같은 진음 (thrill) 을 느낄 수 있었고, 청진시 잡음 (bruit) 을 들을 수 있었다. 다른 경부 림파절은 촉지되지 않았다. 신경학적 검사 및 후두 경검사상 경도의 견관절 거상장애 및 연하곤란 소견보였고 구개반사는 양측이 균등하게 수축하는 양상을 보였으며 좌측 성대가 부정중위에 고정되어 있었다 (Table 1). 방사선학적 소견으로 경부 자기공명영상 촬영상 좌측 이하선에서 갑상선에 이르는 10×8×6cm 크기의 조영이 증가된 병변 (T1WI영상에서는 저신호강도, T2WI영상에서는 고신호강도) 이 후두를 우측으로 밀고 있는 모습이 보였다. 병변은 내경동맥, 외경동맥 그리고 경정맥과 구분이 되지 않았다 (Fig. 1A, B). 혈관조영술상 혈관이 잘 발달된 경동맥체 중

양에 의해 좌측 총경동맥이 거의 폐쇄되었고 종양은 주로 좌측 총경동맥, 좌측 척추동맥, 우측 척추동맥, 좌측 쇄골하동맥의 비정상적인 다수의 소동맥에서 혈액공급을 받고 있었다 (Fig. 2A). 수술시 출혈을 감소시키기 위해 종양으로 가는 주된 동맥인 좌측 총경동맥, 좌측 척추동맥, 좌측 쇄골하동맥을 gelfoam과 microcoil을 이용하여 각각 7~8일 간격으로 4차례의 색전술을 시행한 후 종양의 크기는 50%로 감소되었다 (Fig. 2D). 수술시 총경동맥 결찰 가능성을 고려하여 뇌 단일전자방출 전산화단층촬영 (brain-SPECT) 을 시행하였고 시행 전후의 신경학적 이상소견은 없었다. 수술은 4차 색전술 후 2일째 경부 접근법으로 변형된 Schobinger 절개를 시행하여 종괴박리를 시작하였다. 거대종괴에 의해 흉쇄유돌근은 얇아져 있었으며 측부로 밀려 있었다. 종물은 비교적 피막이 잘 형성되었고 (Fig. 3), 두개저와의 경계는 약 1cm 정도로 경정맥 원위부는 결찰이 가능하였으나 내경동맥의 원위부는 종괴에 의해 관찰할 수 없어 경정맥 결찰 후 주위조직을 광범위하게 봉합결찰 하였다. 이 종괴는 또한 미주신경, 척수부신경 그리고 설하신경

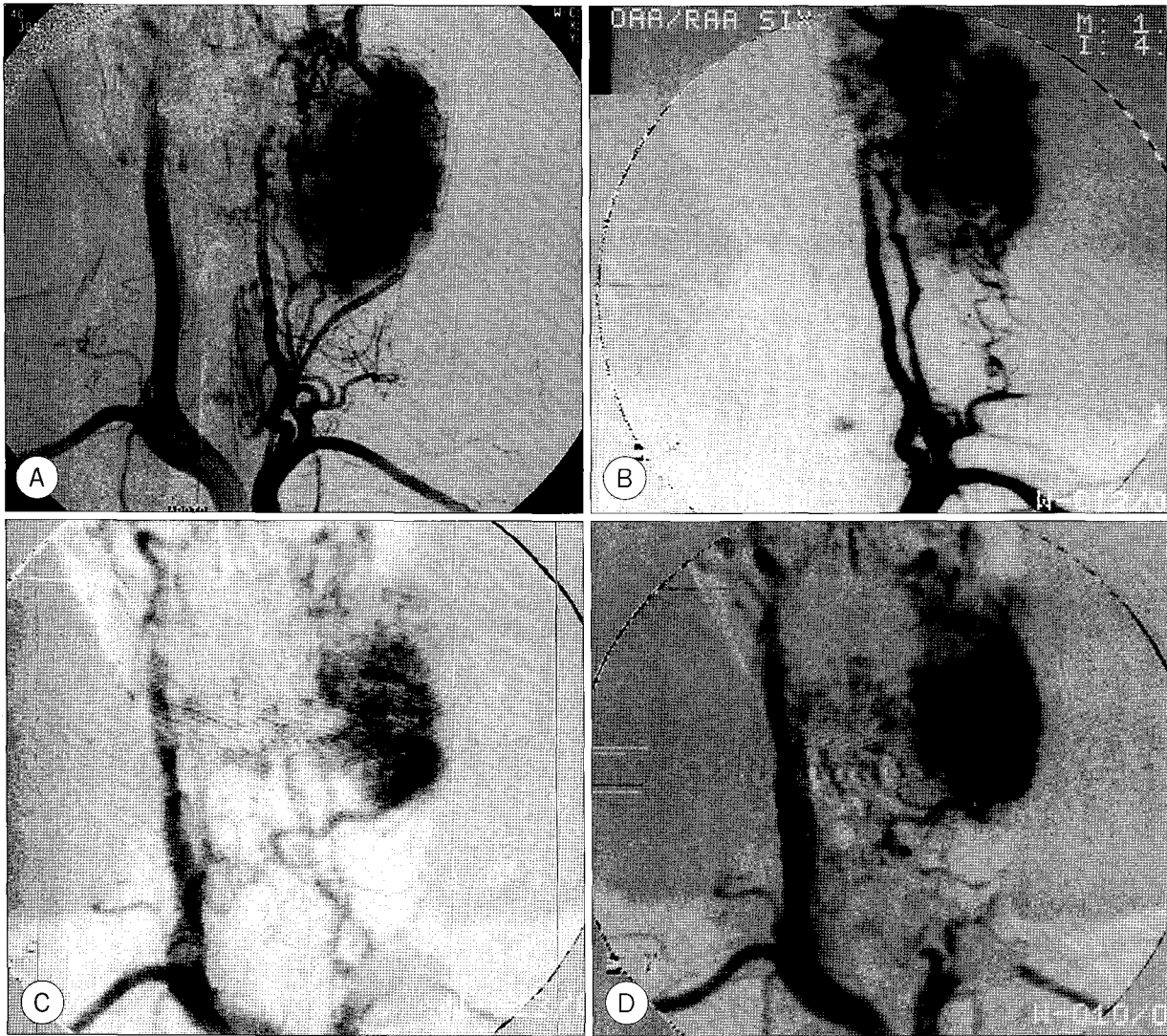


Fig. 2. A : Angiogram of pre-embolization shows the left common carotid artery of near total occlusion at low portion of the mass and prominent left vertebral artery and multiple small feeding arteries. B : Angiogram of 1st embolization C : Angiogram of 2nd embolization D : Angiogram of 4th-embolization shows occlusion of the major feeding arteries (the left common carotid artery, the left vertebral artery, multiple small vessels of the left-subclavian artery). But the small abnormal vessels of the right vertebral artery crossed to the mass remain.

을 완전히 감싸고 있었다. 갑상선과 이하선으로의 침습 소견은 없었다. 총경동맥을 쇄골상부에서 결찰 후 근위부 경정맥을 결찰 하였고 미주신경, 척수부신경, 설하신경을 희생시키면서 종물을 적출하였다. 적출후 설하신경은 단단문합을 통한 신경봉합술을 시행하였다. 술 후 흡인 및 연하장애를 줄이기 위하여 후두현수(laryngeal suspension)와 윤상인두근절개술(cricopharyngeal myotomy), 기관절개술을 시행하였고 창상세척과 출혈 조절 중 갑상선 좌엽에 작은 종물이 우연히 발견되어 조직생검을 시행하고 수술을 마쳤다. 술 후 중등도의 흡인소견이 있으면서 섭식장애가 있어 경비위관을 약 3주간 위치하였고, 식도조영 검사 시행 후에 경구 섭식을 시작하였다. 병리조직검사상 부신경절종(Fig. 4A)으로 진단되었고 수술 중 시행한 갑상선 종물의 조직검사결과 유두상 암종(Fig. 4B)으로 판명되었다. 환자가 조기

수술을 거부하였고 술 후 중등도의 흡인 및 연하장애가 있어 충분한 호전 후인 1차 수술 후 45일째 갑상선 전절제술을 시행하였다(Fig. 5). 수술 후 10일째 연하장애에 더욱 호전 보이고 흡인소견 없이 퇴원하였으며 술 후 10개월째 외래에서 추적 관찰 중이며 경도의 연하장애 있으나 재발이나 흡인의 소견은 관찰 되지 않았다.

고 찰

경동맥체 종양은 경동맥 분지 부위에 존재하는 신경로의 부신경절 조직에서 기원하는 종양으로 주로 자율신경계와 관계된 혈관계 또는 신경에 연관되어 발생하는 비교적 드문 질환으로 알려져 있다. 두경부의 부신경절에서 생기는 부신경절종은 경동맥체에 가장 많이 발생하여 Lack의 보고⁶⁾⁷⁾

에 의하면 부신경절종의 약 60%를 차지한다고 보고하였다.

증상은 대개 하악골각의 아래쪽, 설골의 외측과 흉쇄유돌근의 내측사이에 축지되는 무통성의 종물로 서서히 자라기 때문에 비교적 늦게 발견된다. 종물은 단단하고 동통이 없고 촉진시 진음과 청진시 잡음이 느껴지며 경동맥초에 밀착되어 있어 앞뒤로는 쉽게 움직이나 상하로는 움직임이 제한되어 있다. 드물게 애성, 호흡곤란, 연하장애, Horner

증후군 등 뇌신경에 관련된 증상이 나타날 수 있다.

진단은 병력, 임상증상, 국소소견을 기본으로 하여 경부 전산화단층촬영과 경동맥 혈관조영술로 확진할 수 있다. 혈관조영술에서는 많은 혈관분포를 보이는 종양이 내경동맥을 후방으로 전위시키고 외경동맥을 전방으로 전위시키는 비파모양(lyre sign)을 나타내는 것이 특징이다. 혈관조영술은 경계, 혈액공급에 관여하는 혈관의 확인 및 색전술의 시행, 경동맥의 개통성, 두개내의 측부순환 등을 정확히 판단할 수 있어 치료 계획에 필수적이고⁸⁾⁹⁾, 또한 종양의 혈액공급에 관여하는 혈관에 선택적 색전술을 시행하여 종물의 크기를 줄이고 수술 중 출혈의 감소를 가져와 수술 시간의 단축과 합병증의 감소를 기대할 수 있다.

경동맥체 종양의 치료는 일반적으로 수술적인 절제가 가장 좋은 방법으로 되어 있고, 방사선 치료는 원격 전이가 있거나 제거하기 힘든 경우에 제한적으로 사용된다¹⁰⁾. 혈관 색전술은 보조적인 방법으로 시도되지만 경동맥체 종양이 많

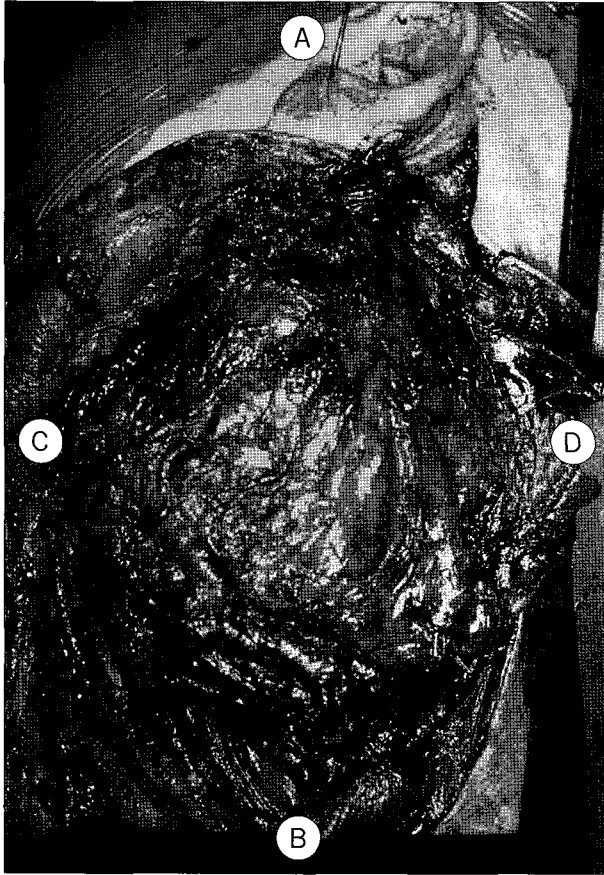


Fig. 3. Intraoperative view. Huge mass after skin elevation. A : superior, B : inferior, C : anterior, D : posterior.

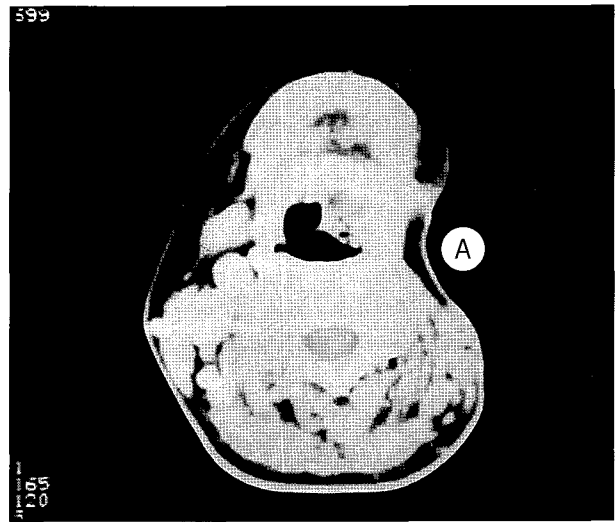


Fig. 5. Axial computed tomographic scan of postoperative neck. A : Postoperative defect.

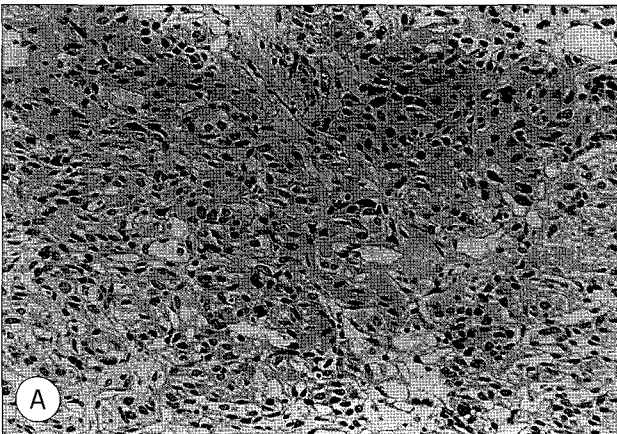


Fig. 4. A : Pathologic finding of paraganglioma : Polygonal cell nests having eosinophilic granular cytoplasm was surrounded fibrovascular septa. B : Pathological appearance of the tumor in the left lobe, showing papillary carcinoma of the thyroid (H-E stain, $\times 100$).

은 혈관으로부터 혈액 공급을 받기 때문에 모두 색전시키는 것은 어렵고, 두개내 전색의 위험성이 있고, 전색에 의한 염증반응이 유도되어 수술적 박리가 어려워 효과적이지 못하다는 주장도 있으나²⁾, 거대한 경동맥체 종양의 경우는 혈관 색전술 후 종양의 크기가 상당히 줄어들고 수술중 대량의 출혈을 예방할 수 있으며 합병증을 낮출 수 있고 수술 시간을 줄일 수 있는 효과적인 방법으로 제시되고 있다⁹⁾¹⁰⁾. 본 증례에서는 gelfoam을 통한 1차 색전술 후 20% 내외의 혈관 감소 효과를 보였고 7~8일 간격으로 microcoil을 이용하여 추가적인 2회 색전술 시행 후 40~50%의 종양 영양혈관(feeding vessel) 감소 효과 보여 2일내 수술 시행 예정이었으나, 환자가 수술 연기를 위하여 10일 후 영양혈관의 신생을 고려하여 추가적인 색전술 시행 후 종양의 크기를 50%로 줄인 후 거대종괴를 완전절제할 수 있었다(Fig. 2A, B, C, D).

수술 후 합병증 및 예후를 결정하는 요인으로는 9, 10, 11, 12번 뇌신경과 내경동맥의 보존이 중요하며 부득히 희생하는 경우 술 후 환자의 흡인, 연하상태, 음성장애 정도에 따라 비위관 삽입과 같은 간접적 치료와 음성치료, 갑상성형술, 피골연골 내전술, 성대내 주입술, 운상인두근 절개술 등의 술식이 고려될 수 있다. 본 증례에서는 후두현수(laryngeal suspension) 및 운상인두근절개술(cricopharyngeal myotomy)를 시행하여 흡인 및 연하곤란에 대한 부작용을 줄이고자 하였다. 술 후 시행한 신경학적 검사상 이들 주요 혈관 및 신경희생에 따른 합병증은 경미하였으나(Table 1) 향후 환자상태를 고려하여 피골연골 내전술 및 갑상성형술(type I)의 시행을 계획하고 있다.

경동맥체 종양은 내분비 종양과 연관성이 있어 다발성 내분비종양 증후군(multiple endocrine neoplasm syndrome, MEN)의 일부로 알려져 있다¹¹⁾. 본 증례에서는 술전 검사 소견상 유두상 암종은 이와 직접적인 관련성이 없을 것으로 여겨진다. 한편 갑상선 유두상 암종과의 연관성은 1968년에 처음으로 보고되었고¹²⁾, 1982년에 Larraza 등은 162명의 경동맥체 종양 환자와 510명의 갑상선 유두상 암종 환자를 검토하여 6명의 환자에서 두 종양이 함께 발견되어 다른 종양과 동반되는 빈도면에서 통계적으로 의미있는 결과를 보고 하였다¹¹⁾¹²⁾. 본 레에서 우연히 발견된 유두상 암

종은 술전 시행한 자기공명영상의 후향적 분석상 갑상선 우엽에 냉결절 소견을 확인 하였고 Larraza¹²⁾ 등의 주장에 부합되나 이후 추가적인 연구가 부족한 상태로 반론의 여지가 있으며 향후 이들 두 종양간의 상관성에 대한 객관적 근거를 뒷받침할 후향적 연구가 필요할 것으로 사료된다.

중심 단어 : 경동맥체 종양 · 갑상선 유두상 암종.

References

- 1) Park JH, Hong CE, Jung DH, Jung HC : Two cases of carotid body tumor. *Korean J Otolaryngol.* 1969 ; 12 : 227-231
- 2) Hong WP, Choi EC, Kim KS, Eom JH, Han EK, Choi IJ : A carotid body tumor treated with end to end anastomosis of the carotid artery. *Korean J Otolaryngol.* 1989 ; 32 : 701-707
- 3) Yoo JY, Kim BK, Kim JY, Park CI : A case of bilateral paraganglioma of the neck. *Korean J Otolaryngol.* 1990 ; 33 (6) : 1257-1261
- 4) Lee HS, Eom SK, Choi JO : Two cases of carotid body tumor. *Korean J Otolaryngol.* 1994 ; 37 : 594-599
- 5) Kim YM, Ham HS, Na KS, Park YM : A case of carotid body tumor. *Clin Otol.* 1998 ; 9 : 348-353
- 6) Saldana MJ, Salem LE, Travezan R : High altitude hypoxia and chemodectomas. *Hum Pathol.* 1973 ; 4 : 251-256
- 7) Krause DH, Sterman BM, Hakaim AG, et al : Carotid body tumors. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1990 ; 116 : 1384-1388
- 8) Hodge KM, Byers RM, Peters LJ : Paraganglioma of the head and neck surgery. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1988 ; 114 : 872-877
- 9) Ward PH, Liu C, Vinuela F, Bentson JR : Embolization : An adjunctive measure for removal of carotid body tumor. *Laryngoscope.* 1988 ; 98 : 1287-1291
- 10) Mitchell DC, Clyne CAC : Chemodectoma of the neck : the response to radiotherapy. *Br J Surg.* 1985 ; 72 : 903-907
- 11) Larraza-Hernandez O, Albores-Saavedra J, Benavides G : Multiple endocrine neoplasia. Pituitary adenoma, multicentric papillary thyroid carcinoma, bilateral carotid body paraganglioma, parathyroid hyperplasia, gastric leiomyoma, and systemic amyloidosis. *Am J Clin Pathol.* 1982 ; 78 : 527-532
- 12) Albores-Saavedra J, Duran ME : Association of thyroid carcinoma and chemodectoma. *Am J Surg.* 1968 ; 116 : 887-890