

갑상선관 낭종에서 기원한 9세 소아의 유두 갑상선암 1예

한림대학교 의과대학 이비인후과학교실,¹ 내분비내과학교실,² 병리과학교실³
최효근¹ · 김동현¹ · 김철식² · 김동훈³ · 김시환¹ · 박범정¹

= Abstract =

Papillary Thyroid Carcinoma Arising from a Thyroglossal Duct Cyst in a 9-Year-Old Child

Hyo Geun Choi, MD¹, Dong Hyun Kim, MD¹, Chul Sik Kim, MD²,
Dong Hoon Kim, MD³, Si Whan Kim, MD¹, Bumjung Park, MD¹

Departments of Otorhinolaryngology-Head & Neck Surgery¹ and Endocrinology² and Pathology,³
Hallym University Sacred Heart Hospital, Anyang, Korea

Thyroglossal duct cyst(TGDC) is the most common midline congenital neck mass in children. However, carcinoma arising from TGDC is very rare and most of them are found in adults. In this report, we describe a 9-year-old child presenting with TGDC, which finally turned out to be papillary thyroid carcinoma. He underwent Sistrunk operation only. We review the literature and highlight the important points of the treatment.

KEY WORDS : Thyroglossal cyst · Thyroid cancer · Papillary · Carcinoma.

서 론

갑상선관 낭종은 가장 흔한 선천성 경부 종물로, 경부 중앙에 위치하는 소아종물의 75% 이상을 차지한다.^{1,2)} 갑상선관 낭종은 대부분 양성이지만 1% 미만의 경우에서 악성으로 발전하는 경우가 있다.³⁾ 1911년 처음 문헌상에 발표된 이후 지금까지 약 250개의 갑상선관 낭종에서 발생한 악성 종양에 대한 보고가 있지만 대부분은 30세 이상의 성인에서 발생한 경우로, 14세 이전에 발생하는 경우는 매우 드물다.^{4,5)} 저자들은 9세 남아에서 갑상선관 낭종을 치료하던 중 발견된 유두 갑상선암 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

9세 남자 환아가 6개월 전 우연히 발견한 전경부 종물을 주

소로 내원하였다. 가족력과 과거력 상 특이 소견 없었으며 이학적 검사에서 우측 전경부 level I 위치에 3×3cm 정도의 낭성 종물이 갑상연골 상부 우측부에서 촉지 되었고, 종물은 고정되지 않았으며 촉진시 압통은 없었다(Fig. 1). 연하시 종물은 상방으로 이동하였다. 만져지는 다른 경부 종물은 없었다. 경부 전산화 단층 촬영상 설골 우측 하방에 위치하는 3×2cm 크기의 분엽된 lobulated 저음영의 낭성 종물과, 낭성 종물 내부에 조영증강 되는 1cm 크기의 고형 종물이 관찰되었다(Fig. 2). 그 외 갑상선은 양측 엽이 정상적으로 있는 것이 확인되었다. 수술 전 시행한 갑상선 기능검사와 기타 혈액 검사는 정상이었다. 수술 전 시행한 세침흡인검사서 비정형 유사피세포 epithelioid cells with atypia를 가진 점액성 mucin 액체가 흡인되었다. 경부 전산화 단층 촬영상 상 낭종 안에 고형의 종물이 있었으나 이에 대해 특별히 초음파를 이용한 세침흡인검사를 시행하지는 않았다.

환자는 전신 마취 하에 Sistrunk 수술을 시행하여 설골의 중앙 1/3 부위를 포함하여 갑상선관 낭종으로 생각되는 종물을 적출하였다. 종물은 주위 조직과 박리가 잘 되었다. 술 후 4일째 특별한 합병증 없이 퇴원하였으나 조직검사에서 갑상선관 낭종에서 발생한 1.5×1.0cm 크기의 유두암으로 진단되었다.

Received : April 16, 2013 / Revised : April 26, 2013

Accepted : April 26, 2013

교신저자 : 박범정, 431-070, 경기도 안양시 동안구 평촌동 896
한림대학교 의과대학 이비인후과학교실

전화 : (031) 380-3849 · 전송 : (031) 386-3860

E-mail : pbj426@hallym.ac.kr

조직 검사상 변연부에서 종양 보이지 않고 설골의 침윤은 없었다. 병리검사상 소견은 유두상 구조에 입방 세포로 둘러싸여 있는 보이는 유두 갑상선암의 소견이었다(Fig. 3). 이소성 갑상



Fig. 1. A midline neck mass(3.0×3.0cm) located between hyoid and thyroid cartilage upper margin level.

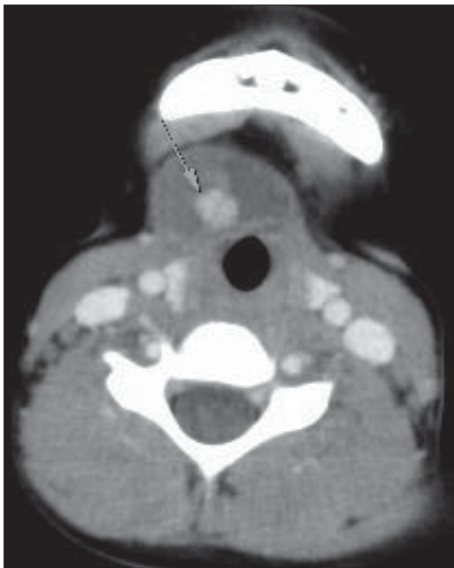


Fig. 2. A lobulated cystic mass(3.0×2.0cm) with solid enhancing mass(1.0×1.0cm) is noted at the right infrahyoid neck.

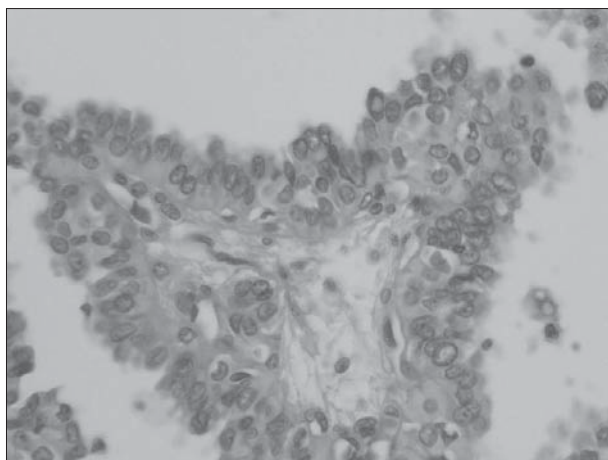


Fig. 3. Papillary fronds lined by cuboidal cells with characteristic clear nuclei(H&E ×400).

선 조직이 낭종 벽 주변에서 관찰되었고, 갑상선관 낭종의 벽에서 위중층원주상피는 관찰되지 않았다.

수술 후 한달 뒤 촬영한 양전자 단층촬영 영상에서 술 후 변화 소견 외에 갑상선과 경부 림프절의 FDG 섭취는 보이지 않았으며 갑상선 초음파 검사에서도 갑상선의 특이 소견은 보이지 않았다. TSH level은 1.71 uIU/mL로 측정되었다. 수술 3개월, 6개월 후 촬영한 갑상선 초음파에서 재발이나 전이 소견은 보이지 않았다. 경부 이학적 검사 상에서도 촉지되는 종물 없이 환자는 12개월째 추적 관찰 중이다.

고 찰

일반적으로 갑상선관 낭종은 인구의 7%에서 존재하는 것으로 알려져 있으며, 갑상선관 낭종의 70%에서는 낭종벽 내에 갑상선 조직을 가지고 있다.⁶⁾ 대부분의 갑상선관 종양은 낭종 내의 갑상선 조직에서 유래한 것으로 조직학적인 특징은 갑상선 종양과 같다.⁷⁾ 갑상선관 낭종에서 발생한 악성 종양의 평균 나이는 40세이며, 여자인 경우가 남자인 경우보다 1.5 : 1로 더 많다.⁸⁾ 갑상선관 낭종에서 발생한 악성 종양은 대부분이 유두암(80%)이고, 그 다음으로는 혼합성 유두상-여포상암(7%), 편평세포상피암(5%)으로 알려져 있다.³⁾ 그 외 Hurthle cell 암, 여포상종, 역형성 암이 보고되었다.⁹⁾ 갑상선관에서 발생한 유두암은 갑상선에 발생한 유두암과 마찬가지로 예후도 매우 좋은 것으로 알려져 있어, 5년 생존율은 100%, 10년 생존율은 95.6%로 보고 되었다.²⁾ 또한 갑상선관 낭종의 유두암은 주변 림프절 조직으로의 전이가 7.7%로 갑상선의 유두암보다 드문 것으로 알려져 있다.¹⁰⁾

일반적으로 악성 종양은 딱딱하고 조정된 불규칙한 모양의 갑자기 커지는 종괴로 나타나는 경우가 많으나, 대부분의 갑상선관 낭종의 종양은 특별한 증상 없이 일반적인 갑상선관 낭종과 구분되지 못하는 경우가 많다. 갑상선관 낭종의 종양은 빈도가 드물고 또한 수술 전 특별한 증상이 없는 경우가 많기 때문에, 수술 전에 예측되지 못하고 수술 후 병리학적으로 진단되는 경우가 많다.¹¹⁾ 본 증례에서도 갑상선관 낭종으로 진단 후 Sistrunk 수술을 시행하였고 이후 병리검사에서 낭종 내 종양이 발견되었다.

Judd와 Nuttal은 갑상선관 낭종 종양을 갑상선에서 전이된 것으로 여겨 갑상선관 낭종의 종양에 대해서 전갑상선 절제술을 같이 시행하여야 한다고 하였다.^{12,13)} 하지만 LiVolsi는 문헌 고찰을 통해 갑상선 절제술은 일반적으로 필요하지 않다고 하였다.⁶⁾ 갑상선관 낭종에서 발생한 전이가 없는 유두암의 Sistrunk 수술만을 이용한 치료율이 95%로 보고되고 있다. 따라서 갑상선 내에 다른 병변이 관찰되지 않고 림프절 전이가 없는 갑상선관 낭종의 유두암 치료로는 Sistrunk 수술이 가장 추천된다.¹⁾ 그러나 갑상선 내에 암으로 의심되는 다른 병변

이 있거나, 경부 림프절전이 있으면 모든 전이 부위에 대해서 수술적 절제를 시행하여야 한다. 또한 방사선 요오드 치료를 같이 시행하여야 한다.¹⁴⁾ 본 증례에서도 Sistrunk 수술 후 시행한 병리 검사상 주위 조직으로 침윤이 관찰되지 않고 수술 후 시행한 갑상선 초음파상 갑상선에 특이 소견이 관찰되지 않아, 추가적인 치료를 시행하지 않고 주기적으로 경과 관찰 중이다. 갑상선관에서 발생한 유두암은 주변에 전이가 없을 경우 Sistrunk 수술만으로도 높은 치료율을 보이고 일반적으로 매우 좋은 예후를 가지므로, 소아 환자에서 긴 여생 동안의 삶의 질을 고려할 때, 전갑상선 절제나 방사선 요오드 치료 없이 주기적으로 추적 관찰하는 것이 가장 적절한 치료라 판단된다.

중심 단어 : 갑상선관 · 낭종 · 갑상선암 · 유두암.

References

- 1) Mazzaferri EL. *Thyroid cancer in thyroglossal duct remnants: a diagnostic and therapeutic dilemma. Thyroid. 2004;14(5):335-336.*
- 2) Patel SG, Escrig M, Shaha AR, Singh B, Shah JP. *Management of well-differentiated thyroid carcinoma presenting within a thyroglossal duct cyst. J Surg Oncol. 2002;79(3):134-139; discussion 140-131.*
- 3) Weiss SD, Orlich CC. *Primary papillary carcinoma of a thyroglossal duct cyst: report of a case and literature review. Br J Surg. 1991;78(1):87-89.*
- 4) Jaques DA, Chambers RG, Oertel JE. *Thyroglossal tract carcinoma. A review of the literature and addition of eighteen cases. Am JSurg. 1970;120(4):439-446.*
- 5) Peretz A, Leiberman E, Kapelushnik J, Hershkovitz E. *Thyroglossal duct carcinoma in children: case presentation and review of the literature. Thyroid. 2004;14(9):777-785.*
- 6) LiVolsi VA, Perzin KH, Savetsky L. *Carcinoma arising in median ectopic thyroid (including thyroglossal duct tissue). Cancer. 1974;34(4):1303-1315.*
- 7) Kristensen S, Juul A, Moesner J. *Thyroglossal cyst carcinoma. J Laryngol Otol. 1984;98(12):1277-1280.*
- 8) Kennedy TL, Whitaker M, Wadiah G. *Thyroglossal duct carcinoma: a rational approach to management. Laryngoscope. 1998;108(8 Pt 1):1154-1158.*
- 9) Chu YC, Han JY, Han HS, Kim JM, Min SK, Kim YM. *Primary papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst. Yonsei Med J. 2002;43(3):381-384.*
- 10) Heshmati HM, Fatourehchi V, van Heerden JA, Hay ID, Goellner JR. *Thyroglossal duct carcinoma: report of 12 cases. Mayo Clin Proc. 1997;72(4):315-319.*
- 11) Wigley TL, Chonkich GD, Wat BY. *Papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst. Otolaryngol Head Neck Surg. 1997;116(3):386-388.*
- 12) Keeling JH, Ochsner A. *Carcinoma in thyroglossal duct remnants: review of literature and report of 2 cases. Cancer. 1959;12(3):596-600.*
- 13) Snedecor PA, Groshong LE. *Carcinoma of the thyroglossal duct. Surgery. 1965;58(6):969-978.*
- 14) Martin-Perez E, Larranaga E, Marron C, Monje F. *Primary papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst. Eur J Surg. 1997;163(2):143-145.*