

정상 갑상선 환자의 일차성 다발성 흉강내 갑상선종의 수술적 치료 1예

부산대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실,¹ 흉부외과학교실²

천용일¹ · 서효석¹ · 이호석² · 이병주¹

Primary Multiple Intrathoracic Goiter with Normal Thyroid Glands : Case Report

Yong-Il Cheon, MD¹, Hyo-Seok Seo, MD¹, Ho-Seok Lee, MD, PhD² and Byung-Joo Lee, MD, PhD¹

¹Department of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery; ²Thoracic and Cardiovascular Surgery,
Pusan National University Hospital, Busan, Korea

— ABSTRACT —

Ectopic thyroid tissue is a rare developmental abnormality and commonly could be found in the base of the tongue, it could also be found in the submandibular or sublingual sites, larynx, trachea, esophagus, mediastinum and heart. Primary intrathoracic goiter is defined as the thyroid tissue present in the mediastinum in the presence of the cervical thyroid and there is a total discontinuity between the cervical thyroid and the mediastinal ectopic goiter. Primary intrathoracic ectopic goiter is rare and primary multiple intrathoracic ectopic goiter is very rare. A 48-year-old woman visited in our outpatient clinic with a complaint of dry cough during 3 weeks. We report a case of surgically removed primary multiple intrathoracic goiters with normal thyroid gland. (J Clinical Otolaryngol 2019;30:298-302)

KEY WORDS : Ectopic goiter · Mediastinum · Thyroid gland · Surgery.

서 론

원시 갑상선(primordial thyroid gland)는 임신 4주경 설부(tongue)에서 확인할 수 있으며 5주차부터 하강을 시작하여 8주경 기도(tracheal level)에 도달한다.¹⁾ 흉강내 갑상선종(intrathoracic goiter)는 흉강 입구(thoracic inlet) 아래로 하강하거나 종물 크기의 50% 이상이 흉강

입구 아래에 위치하는 경우이며 일차성과 이차성으로 분류할 수 있다. 일차성 흉강내 갑상선종은 갑상선 원기(thyroid anlage)의 비정상적인 이동이며 이차성은 정상 갑상선의 종격동(mediastinum)으로의 하강을 의미한다. 이때 흉강 입구는 흉추 1번 척추(T1)이 뒤쪽을, 1번 늑골이 가쪽을, 복장뼈(manubrium)의 상연(superior border)이 앞쪽 경계를 이루는 입체적인 공간이다. 이소성 갑상선(ectopic thyroid)는 90% 정도가 설갑상선(lingual thyroid) 형태로 발견되며 그밖에 하악, 전후두부, 식도, 종격동, 담낭 및 십이지장을 포함하는 위장간에도 발생할 수 있다.^{1,2)}

일차성 흉강내 갑상선종은 경부에 정상적인 갑상선이 존재하면서 흉강 내에 갑상선종이 확인되고 정상 갑상선

논문접수일 : 2019년 9월 29일
논문수정일 : 2019년 11월 5일
심사완료일 : 2019년 12월 2일
교신저자 : 이병주, 49241 부산광역시 서구 구덕로 179
부산대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실
전화 : (051) 240-7335 · 전송 : (051) 246-8668
E-mail : voiceleebj@gmail.com

과 종격동에 있는 갑상선종에 연결이 없으며 이전 갑상선 절제술 병력이 없고 경부가 아닌 흉부에서 혈액의 공급을 받는 종물로 정의한다. 이소성 갑상선이 단발성 일차성 흉강내 갑상선 종물로 발생하는 경우는 드물지만 간혹 보고되고 있다. 그러나 이소성 갑상선 조직에 의해 흉강내 종물로 발생하는 다발성 흉강내 갑상선종(multiple intrathoracic goiter)은 매우 드물다.³⁾ 이에 본 저자들은 3주간 기침을 주소로 내원한 40대 여자에서 발견된 일차성 다발성 흉강내 갑상선종을 진단, 성공적으로 치료한 결과를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

48세 여자 환자로 내원 전 3주간의 기침으로 외부 병원을 방문하여 시행한 흉부 전산화 단층촬영(chest computed tomography, chest CT) 검사상 종격동 종양(mediastinal tumor)이 확인되어 본원으로 전원되었다. 과거력상 고혈압으로 약물 치료 중이며 25년전 나팔관 절제술을 받은 병력 이외에 특이 사항은 없었다. 수술 전 경

부 CT에서 종물은 크기가 약 9.8×5.7 cm이었고 이질성 다엽성 종물(heterogeneous lobulated mass) 형태로 좌측 갑상선 하극(inferior pole)에서 시작하여 종격동까지 내려가 있는 점상형 국소 석회화(punctate calcification) 양상이었다. CT상 조영전 음영은 주위 근육과 비슷하였으나 조영후에는 음영이 증가하였다. 종물의 정확한 평가를 위해 흉부 자기공명영상(chest magnetic resonance, chest MR) 검사를 시행하였고 T1, T2 강조영상에서 주위 근육 조직에 비해 고신호 강도를 보이는 갑상선에 연결되어 있는 흉강내 다엽성 갑상선종(intrathoracic multilobulated goiter)이 의심된다고 보고되었다(Fig. 1).

환자의 기도는 종물에 의해 좁아지지 않았고 혈액학적 검사에서 T3 153.6 ng/dL(79.8~200), 유리 T4 1.40 ng/dL(0.75~2.00), 갑상선자극호르몬(thyroid stimulating hormone, TSH) 0.30 uIU/mL(0.3~0.5)으로 정상적인 갑상선 기능을 확인할 수 있었다. 그러나 종물이 큰 상태였기 때문에 종물에 의한 기도 협착 및 대혈관의 압박, 신경 손상 등 전신적인 합병증 가능성이 충분히 발생할 수 있는 상태라고 판단하여 수술적 제거를 고려하였다.

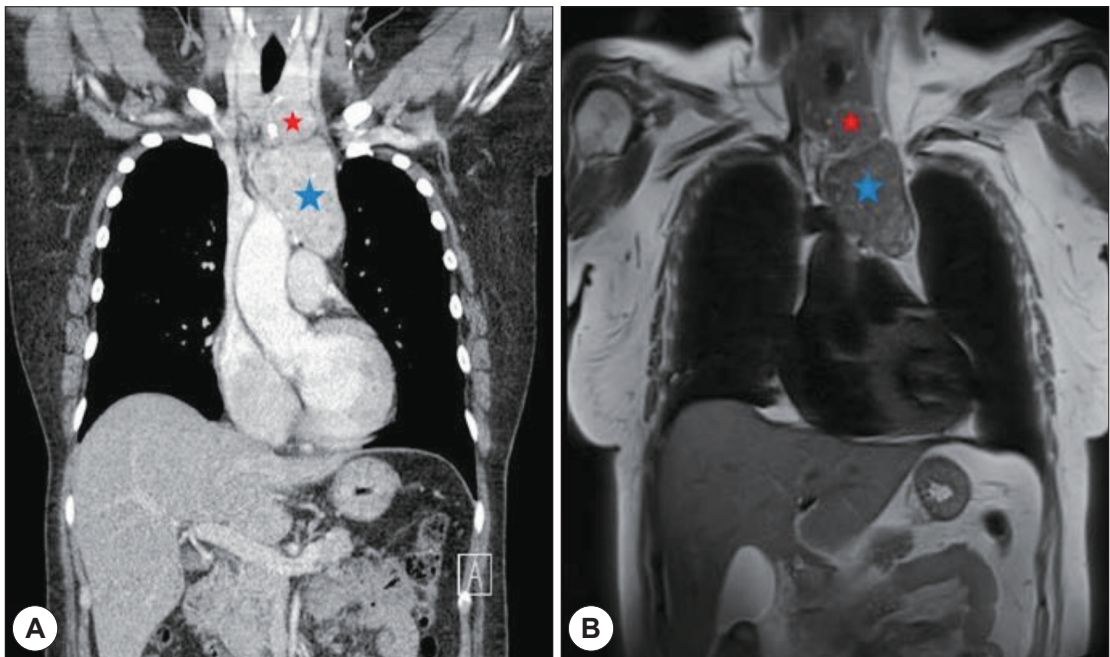


Fig. 1. Preoperative radiologic findings. A : Preoperative contrast chest CT coronal view. Red & blue star indicate the suspected lobulated mass. The mass is extended from the lower neck to mid-thoracic level. B : T2-weighted contrast chest MR image shows low intensity and calcified mass.

수술은 전신마취 하에 시행하였으며 환자의 위치는 누운 자세로 목을 신전시킨 후 흉골 절흔(sternal notch)에서 약 2 cm 위에 피부 주름선을 따라 약 12~13 cm을 피부 절개하였다. 피부 절개 후 광견근하 경부 피판(subplatysmal flap)을 들어 올렸으며 종물이 종격동까지 내려가 있었으므로 쇄골 위 부분까지 아래쪽으로도 피부 피판을 박리하였다. 피대근(strap muscle)의 중앙을 박리하여 갑상선의 협부를 찾았고 아래측으로 진행하여 좌측 갑상선과 그 하부에 있는 종물을 관찰할 수 있었다. 수술 전 CT 및 MR 판독상 종물은 갑상선과 연결되어 있다고 예상되었지만 수술 중 확인한 결과 정상 갑상선은 경부 종격동 종물과 분리되어 있었고 종물에 의해 상방으로 밀려 있었다. 정상 갑상선은 추가적인 처치 없이 그대로 보존하면서, 갑상선 하방에 있는 상부 종격동 종물을 제거하는 과정에서 하부에 경부에서 관찰되는 종물과는 다른 종격동의 상부 및 중부에 걸쳐 있는 종물이 관찰되었다. 두 개의 종격동 종물은 비교적 쉽게 분리되었으나 후두반회신경(recurrent laryngeal nerve, RLN)은 경부 종물에 의해 후방으로 밀려 있어 수술 중 신경 모니터링을 통해 조심스럽게 박리하며 안전하게 분리하였고 상부 종격동 종물을 경부에서 제거하였다(Fig. 2A).

상부 종격동 종물은 경부로 제거가 가능하였지만, 상부 종격동 종물과 분리된 중부 종격동의 종물이 매우 크고, 흉강에 있는 혈관에서 혈액 공급을 받고 있어 중부 종격동 종물을 경부 접근 방식으로는 완전한 제거가 어

려워 흉부외과에서 정중 흉골 절개술(median sternotomy) 접근법을 통해 개흉하여 제거하였다. 중부 종격동에 있던 종격동 종물은 약 8.0×7.0 cm 크기로 측정되었다(Fig. 2B). 출혈이 없음을 확인하고 경부에 100 cc 배액관 및 흉부에 2개의 24 Fr 흉관삽관(chest tube)을 하고 피부봉합을 한 후 수술을 종료하였다.

술후 병리 검사 결과는 갑상선 조직에서 발생한 결절성 증식(nodular hyperplasia) 소견을 보이는 갑상선종으로 확인되었다(Fig. 3). 본 증례는 종격동 상부와 하부의 2개로 분리된 다발성 이소성 흉강내 갑상선종으로 진단된 사례이다.

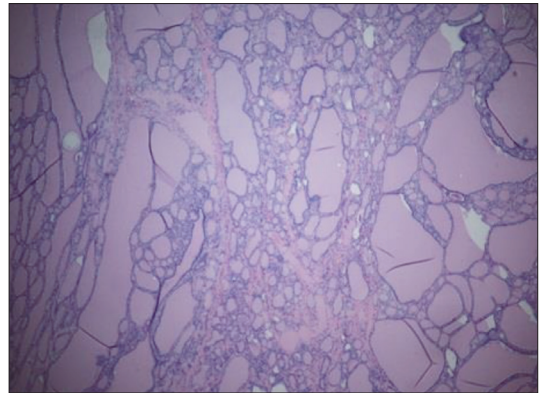


Fig. 3. Histologic findings. Follicles are irregularly enlarged and aggregated. Variable sized follicles with hyperplastic nodules can be seen (H&E stain, ×40).

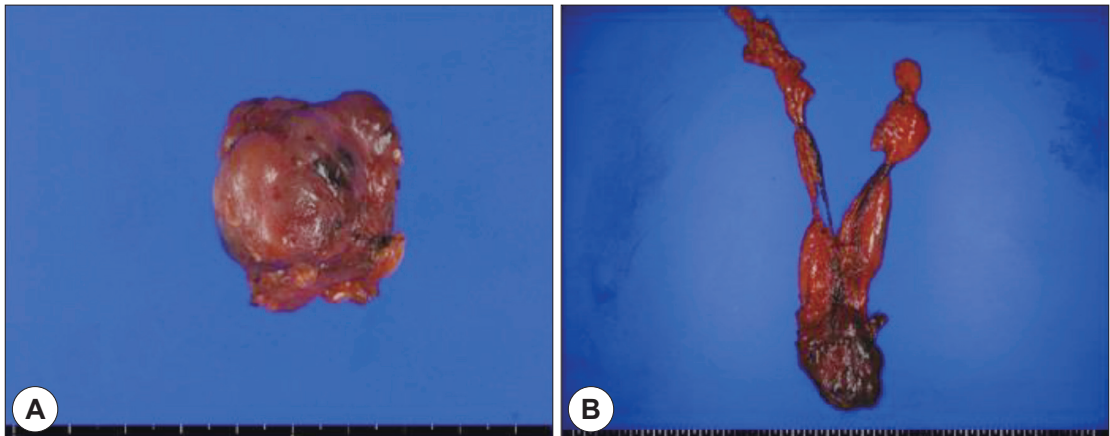


Fig. 2. Postoperative surgical specimens. The appearance of two specimens with no connections between two masses. A : Upper mediastinal mass (4×3 cm) adjacent to thyroid. B : Upper and middle mediastinal mass (8×7 cm).

고 찰

일차성 흉강내 갑상선종(primary intrathoracic goiter)은 드문 질환으로 흉강에서 발견되는 갑상선종의 0.2~1%를 차지하고 여성에게 흔하며 남녀비는 약 3 : 1에서 4 : 1로 보고되고 있다. 일차성 흉강내 갑상선종은 이소성(ectopic, heterotopic), 독립된(isolated), 비정상적(aberrant) 등 다양하게 표기되며 정상 갑상선에서 기원하여 흉강내로 이동 후 증식하는 이차성 흉강내 갑상선종(secondary intrathoracic goiter)과 구분된다.^{3,4)}

환자가 호소하는 증상으로는 경부 종물로 촉지되어 내원하는 경우가 가장 흔하며 압박감, 호흡곤란, 삼킴 곤란, 기침 등이 있으나 증상 없이 우연히 발견되는 경우도 많다. 갑상선종으로 인한 증상은 종물의 크기가 충분히 커지는 50~60대에 주로 발생하며 기관, 식도, 폐, 상대정맥(superior vena cava) 등 근처의 기관을 압박하여 특히 기관 압박에 의한 급성 호흡 불편감을 유발할 수 있다. 식도의 압박은 25% 환자에서 발생할 수 있으며 상대정맥 증후군은 상대적으로 드문 것으로 알려져 있다.^{3,5)}

Nakaya 등⁵⁾이 2016년 발표한 연구에서 44명의 흉골하 갑상선종(substernal goiter) 환자 중 77.2%가 경부 종물, 31.8%가 답답한 기분(oppressive feeling), 11.4%가 호흡곤란, 13.6%가 삼킴 곤란, 2.2%가 기침, 18.2%는 증상이 없는 것으로 보고하였다. 본 증례에서는 내원 3주 전부터 발생한 마른 기침(dry cough)이 주증상이었는데 흔한 증상은 아니지만 감별시 주의하여 평가해야 할 필요가 있다. 대부분의 흉강내 갑상선종 환자는 정상 갑상선 기능(euthyroid state)을 유지하고 있다.⁵⁾ 흉부 X-ray 검사를 통해 종격동 종물이나 상종격동의 확장, 기관의 전이(deviation) 등을 확인할 수 있으나 흉부 CT 검사가 진단에 가장 적합하다.^{1,5)} 조직검사는 영상의학적 소견으로 대부분 진단이 가능하기 때문에 필수적이지 않으나 기형종(teratoma), 배세포종(germ cell tumor), 캐슬만병(Castleman's disease), 신경기원성 종양(neurologic tumor) 등과 감별이 필요할 때 시도해볼 수 있으며 매우 드물게 결절성 과증식증의 형태를 나타내어 악성으로 관찰되기도 하므로 주의하여야 한다.^{6,7)} 본 증례에서는 흉부 CT 및 MR 검사상 갑상선종으로 의심되어 수술 전 조직 검사를 시행하지 않았다.

치료는 수술적 제거가 표준 치료이나 증상이 없는(asymptomatic) 환자에 대해서는 논란의 여지가 있으며 수술 전 고용량 방사선 동위원소요소(radioactive 131I) 치료를 통해 종물의 크기를 감소시킬 수 있다. 경부 절개를 통한 접근만으로도 종물이 제거될 수 있지만, 흉골 절개(sternotomy)를 동시에 시행하면 주로 흉강내에 갑상선종이 위치하는 본 증례와 같이 일차성 흉강내 갑상선종 및 다른 거대한 종물의 제거에 유용한 수술 방법이다. 또한 일차성 흉강내 갑상선종은 흉강내로부터 혈액 공급을 받을 수 있기 때문에 경부 접근이 어렵고 이로 인해 흉골 절개가 필요한 경우가 있다. 흉강내 갑상선종은 기관 압박의 위험이 크고 수술 후 이환율(morbidity)은 비교적 낮기 때문에 수술적 제거가 우선 고려 된다.⁷⁾ 그러나 흉골 절개를 통한 접근법은 안전한 술식이지만, 수술 후 기관 붕괴(tracheal collapse)가 와서 기관절개술을 하거나 기계적 환기술(mechanical ventilation)이 요구되는 등 기도 문제, 감염, 종격동의 혈관들을 절찰하는 과정에서 생기는 출혈, 폐색전증(pulmonary embolism) 등의 합병증이 발생할 수 있기 때문에 숙련된 술기가 필요하다.^{4,6,8,9)}

일차성 흉강내 갑상선종은 드문 선천성 양성 종물이지만 환자가 생존해 있는 동안에는 지속적으로 자라는 양상이기 때문에 발견된다면 크기가 작더라도 초기 치료로써 수술적 제거를 추천하며 CT를 통해 진단을 내릴 수 있으나 다른 질환과의 감별이 필요한 경우 조직학적 검사를 추가적으로 시행하는 것이 좋다. 본 예에서와 같이 기침을 주소로 내원할 수 있으므로 정밀한 문진과 평가가 외래에서 고려되어야 한다. 갑상선 결절이 종격동까지 확장된 일차성 흉강내 종물인 경우에는 혈관이 경부로 연결되어 있어 상대적으로 일차성 종물에 비해 경부 접근에 의해 수술적 제거가 용이하다. 그러나 일차성 흉강내 종물인 경우에는 혈액을 흉강내 혈관에서 공급받기 때문에 흉골 절개를 필요한 경우가 많다. 본 증례도 크기가 작았던 상부 종격동 종물은 경부 접근을 통해 제거가 가능했지만, 중부 종격동의 종물은 흉강에서 혈관 지배를 받고 있어 경부 제거가 힘들어 흉골 절개를 시행하였다.

이소성 갑상선 조직에서 발생한 일차성 흉강내 갑상선종은 주로 단발성으로 발생하는 경우가 많다. 문헌 고찰

에서도 다발성의 일차성 흉강내 갑상선종은 보고된 것이 거의 없다. 본 증례는 2개로 분리된 다발성 흉강내 갑상선종으로 경부 및 흉골 절개를 통한 수술적 접근법을 통해 완치한 사례를 보고하는 바이다. 이러한 다발성 종격동 종양이 하나의 이소성 갑상선 조직에서 독립적으로 발생한 별개의 종격동 종양인지, 아니면 두개의 이소성 갑상선 조직에서 따로 각각 발생한 종격동 갑상선종인지는 불명확하다.

중심 단어 : 이소성 갑상선종 · 흉강 · 갑상선 · 수술.

REFERENCES

- 1) Guerra G, Cinelli M, Mesolella M, Tafuri D, Rocca A, Amato B, et al. Morphological, diagnostic and surgical features of ectopic thyroid gland: a review of literature. *Int J Surg* 2014;12 Suppl 1:S3-11.
- 2) Mysorekar VV, Dandekar CP, Sreevathsa MR. Ectopic thyroid tissue in the parotid salivary gland. *Singapore Med J* 2004;45(9):437-8.
- 3) Foroulis CN, Rammos KS, Sileli MN, Papakonstantinou C. Primary intrathoracic goiter: a rare and potentially serious entity. *Thyroid* 2009;19(3):213-8.
- 4) White ML, Doherty GM, Gauger PG. Evidence-based surgical management of substernal goiter. *World J Surg* 2008; 32(7):1285-300.
- 5) Nakaya M, Ito A, Mori A, Oka M, Omura S, Kida W, et al. Surgical treatment of substernal goiter: an analysis of 44 cases. *Auris Nasus Larynx* 2016;44(1):111-5.
- 6) Regal M, Kamel MM, Alyami H, Al-Osail EM. Mediastinal ectopic thyroid mass with normal thyroid function and location: case report. *Int J Surg Case Rep* 2018;52:5-7.
- 7) Park CM, Ahn DB, Park JY, Park JS. Ectopic thyroid nodular hyperplasia misdiagnosed as an anterior mediastinal malignant mass: a case report. *J Clinical Otolaryngol* 2010; 21(2):288-92.
- 8) Doulaptsi M, Karatzanis A, Prokopakis E, Velegrakis S, Loutsidi A, Trachalaki A, et al. Substernal goiter: treatment and challenges. Twenty-two years of experience in diagnosis and management of substernal goiters. *Auris Nasus Larynx* 2019;46(2):246-51.
- 9) Di Crescenzo V, Vitale M, Valvano L, Napolitano F, Vatrella A, Zeppa P, et al. Surgical management of cervico-mediastinal goiters: our experience and review of the literature. *Int J Surg* 2016;28 Suppl 1:S47-53.